

Journal of

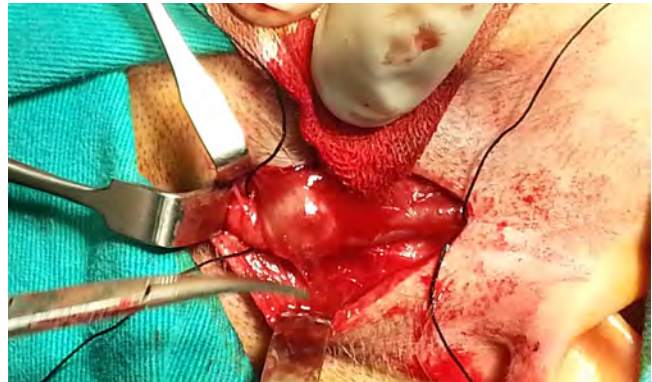
# *Clinical and Analytical Medicine*

Klinik ve Analitik Tıp Dergisi

Vol: 5 Supplement 4 August 2014

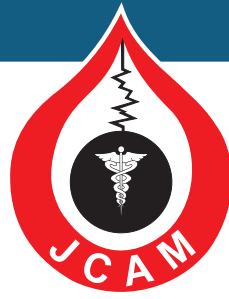
## Traumatic Dissecting Aneurysm of Superficial Temporal Artery: A Case Report

Gezici AR, Dagistan Y, Gurel K, Dagistan E, Ozkan N



### Contents;

- *Left Coronary Artery Originated from Right Sinus of Valsalva: Case Report*
- *A Rare Cause of Congenital Hypotonia: Walker Warburg Syndrome*
- *Rhinocerebral Mucormycosis: A Rare Diagnose for Emergency Room; Case Report*
- *Propylthiouracil Hepatotoxicity Seen with Jaundice and its Treatment by Steroids*
- *Headache Could Be Finding of Sinus Vein Thrombosis in Behcet's Patients*
- *Intrauterin Device Migration to the Bladder and Endoscopic Treatment; Case Report*
- *Giant Retroperitoneal Liposarcoma with Multi-Organ Involvement*
- *Insulinoma May Present as Epilepsy: A Case Report*
- *A Case of Chemical Ventriculitis Due to Intraventricular Colistin Treatment*
- *Coexistence of Schizophrenia and Frontotemporal Dementia: A Case Report*
- *Titanium Implant Medialization Laryngoplasty Application in the Case of a Silicone and Gore-Tex Extrusion*
- *Hemoperitoneum From Spontaneous Bleeding of a Uterine Subserous Leiomyoma: A Case Report*
- *Incomplete McCune-Albright Syndrome: A Case Report*



Journal of

# Clinical and Analytical Medicine

Klinik ve Analitik Tıp Dergisi

Vol: 5 Supplement 4 August 2014

## DERGİ

Journal of Clinical and Analytical Medicine  
(Kısa Başlık: J Clin Anal Med)

Kartaltepe Mahallesi, Atatürk Bulvarı, Belediye İşhanı, No: 9/9, Bala, Ankara, Türkiye.  
GSM: +905303042583 • F.: +90 3128761089 • www.jcam.com.tr • info@jcam.com.tr

### Yayıncı

Derman Tıbbi Yayıncılık

Kartaltepe Mh. Atatürk Cd. No: 9/9,  
Bala, Ankara, Türkiye.  
T.: +90 3128761089  
E-posta: info@jcam.com.tr

### Editör

Orhan Yücel

GATA Göğüs Cerrahisi. AD.  
06118, Etilik, Ankara.  
T.: +905303042583  
E-posta: editor@jcam.com.tr

### Sekreter

Ülker Bora, Jim Morgan

Kartaltepe Mh, Atatürk Cad.  
No: 9/9, Bala, Ankara.  
T.: +90 3123045188  
E-posta: secretary@jcam.com.tr

Klinik ve Analitik Tıp Dergisi, tıbbın her dalı ile ilgili retrospektif, prospektif veya deneysel çalışmaları, ilginç olgu bildirimlerini, davet üzerine yazılan derlemeleri, editöre mektupları, orijinal görüşmeleri, kongre, kurs, seminer, haber ve duyuruları, ilginç araştırmaların özetlerini ve güncel tıp gündemindeki konuları yayınlar. Yayıncılar, reklamı verilen ticari ürünlerin açıklamaları konusunda hiçbir garanti vermemekte ve konuyla ilgili sorumluluk kabul etmemektedir. Dergi yılda 6 sayı olarak Ocak, Mart, Mayıs, Temmuz, Eylül ve Kasım aylarında yayınlanmaktadır. Yazıların bilimsel sorumluluğu yazarlara aittir.

Journal of Clinical and Analytical Medicine publishes every branch of medicine concerned with the retrospective, prospective or experimental studies, interesting case reports, invited reviews, letters to the editor, original images, congress, course, seminar, news item and declaration, brief reports on original studies, and current medical issues in the agenda. Publishers do not give any guarantees about description of the commercial product and do not accept responsibility for the subject. The journal is published six times in a year and in January, March, May, July, September ve November. The author(s) undertake(s) all scientific responsibility for the manuscript.

### JCAM İndeklendiği Dizinler / Index

Embbase; Index DOAJ, EMBASE, SCOPUS, Index Copernicus, Pleksus Medline, TÜBİTAK ULAKBİM, Türkiye Atf Dizini

Matbaa/Yayınevi/Satış/Dağıtım: Derman Tıbbi Yayıncılık, Kartaltepe Mah, Atatürk Cad, No: 9/9, Bala, Ankara, Türkiye. T.: +90 3128761089 • F.: +90 3128761089 • E-Mail: info@jcam.com.tr • Basım Tarihi/Press Data: 01.09.2013

## Editör / Editor

**Orhan Yücel**, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey

## Bölüm Editörleri / Section Editors

**Ali Çelik**, Thoracic Surgery, Gazi University Faculty of Medicine, Ankara, Turkey, **Ali Sızlan**, Anesthesiology, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Ayşe Eken**, Pharmaceutical Toxicology, Erciyes University, Pharmacy Faculty, Kayseri, Turkey, **Betül Battaloğlu İnanç**, Family Physician, Mardin Artuklu University, Mardin, Turkey, **Bünyamin Sertoğullarından**, Pulmonology, Van Yüzüncü Yıl University Faculty of Medicine, Van, Turkey, **Didem Sonbay**, Otolaryngology, Antalya Selale Private Medical Center, Antalya, Turkey, **Esin Kulaç**, Medical Education, Kocaeli University Faculty of Medicine, Kocaeli, Turkey, **Esmâ Menevşe**, Medical Biochemistry, Selçuk University Faculty of Medicine, Konya, Turkey, **Hacı Bayram Tosun**, Orthopedics and Traumatology, Adıyaman University Faculty of Medicine, Adıyaman, Turkey, **Harun Çakmak**, MD, Ophthalmology, Adnan Menderes University Faculty of Medicine, Aydın, Turkey, **Hasan Senol Çoşkun**, Medical Oncology, Akdeniz University Faculty of Medicine, Antalya, Turkey, **İlknur Balta**, Dermatology, Eskişehir State Hospital, Ankara, Turkey, **Kenan Ahmet Türkdöğün**, Emergency Medicine, Bezmialem University Faculty of Medicine, İstanbul, Turkey, **Mehmet Gamsızkan**, Pathology, Erzurum Mareşal Çakmak Military Hospital, Erzurum, Turkey, **Mürteza Çakır**, Neurosurgery, Atatürk University Faculty of Medicine, Erzurum, Turkey, **Mürüvvet Seda Balaban**, Hematology, Hacettepe University Faculty of Medicine, Ankara, Turkey, **Mustafa Burak Hoşcan**, Urology, Başkent University Faculty of Medicine, Antalya, Turkey, **Nagehan Didem Sarı**, Clinical Microbiology and Infectious Diseases, İstanbul Training and Research Hospital, İstanbul, Turkey, **Nazif Zeybek**, General Surgery, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Özgür Pirgon**, Pediatric Endocrinology and Diabetes, Süleyman Demirel University, Faculty of Medicine, Isparta, Turkey, **Özlem Boybeyi**, Pediatric Surgery, Kırıkkale University Faculty of Medicine, Kırıkkale, Turkey, **Özlem Erten**, Obstetrics and Gynecology, Etlik Zübeyde Hanim Training and Research Hospital, Ankara, Turkey, **Şafak Ersöz**, Pathology, Karadeniz Technical University Faculty of Medicine, Trabzon, Turkey, **Salih Sinan Gültekin**, Nuclear Medicine, Dışkapı Yıldırım Beyazıt Training and Research Hospital, Ankara, Turkey, **Vildan Kaya**, Radiation Oncology, Süleyman Demirel University School of Medicine, Isparta, Turkey, **Yusuf Sinan Şirin**, Surgery, Faculty of Veterinary Medicine, Ankara University, Ankara, Turkey, **Yusuf Sinan Şirin**, Vet, Surgery, Faculty of Veterinary Medicine, Ankara University, Ankara, Turkey, **Zekeriya Arslan**, Cardiology, Ankara Mevki Military Hospital, Ankara, Turkey

## Yardımcı Editörler / Associate Editors

**Ali Yavuz Karahan**, Physical Medicine and Rehabilitation, Beyhekim State Hospital, Konya, Turkey, **Hakan Levent Gül**, Neurology, Kartal Training and Research Hospital, İstanbul, Turkey, **İsmail Şalk**, Radiology, Cumhuriyet University Faculty of Medicine, Sivas, Turkey, **Oğuzhan Okutan**, Pulmonary Medicine, Gülhane Military Medical Academy, İstanbul, Turkey, **Ömer Gökhan Doluoğlu**, Urology, Ankara Training and Research Hospital, Ankara, Turkey, **Osman Başpınar**, Pediatric Cardiology, Gaziantep University Faculty of Medicine, Gaziantep, Turkey, **Bünyamin Sertoğullarından**, Pulmonology, Van Yüzüncü Yıl University Faculty of Medicine, Van, Turkey

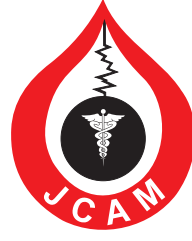
## Uluslararası Danışma Kurulu / International Editorial Board

**Ahmet Tunç Özdemir**, Urology, Yeditepe University Faculty of Medicine, İstanbul, Turkey, **Abdülkadir Tepeler**, Urology, Bezmialem University Faculty of Medicine, İstanbul, Turkey, **Abramson Horacio**, Thoracic Surgery, Universidad de Buenos Aires Buenos Aires, Argentina, **Ali Serdar Gözen**, Urology, SLK-Kliniken Urology Department, Heidelberg University, Heilbronn, Germany, **Alper Özorak**, Urology, Süleyman Demirel University Faculty of Medicine, Isparta, Turkey, **Basar Sareyyopoglu**, Cardiothoracic Surgery, TAMHSC College of Medicine, Texas, USA, **Carla Lamb**, Pulmonology, Critical Care Medicine, Lahey Clinic, Burlington, USA, **Crisan Nicolae**, Urology, Clinical Municipal Hospital, Cluj-Napoca, Romania, **Ersin Zümrütbaş**, Urology, Pamukkale University Faculty of Medicine, Denizli, Turkey, **Farah Aziz Khan**, Medical Biochemistry, College of Applied Medical Sciences, Shahjahanpur, India, **Fatih Zor**, Plastic Surgery, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Frank-Martin Haecker**, Pediatric Surgery, University Children's Hospital, Basel, **Gennaro Musi**, Urology, Deputy Director, Division of Urology, European Institute of Oncology, Milano, Italy, **Hans K. Pilegaard**, Cardiothoracic Surgery, Aarhus University Hospital, Denmark, **Hayati Bilgiç**, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Hyung Joo Park**, Thoracic and Cardiovascular Surgery, Korea University Medical Center, Korea, **Ioan Coman**, Urology, "Iuliu Hatieganu" University of Medicine and Pharmacy, Cluj-Napoca, Romania, **M. Ahmet Tunçkiran**, Urology, Başkent University Faculty of Medicine, Antalya, Turkey, **Mesut Pişkin**, Urology, Necmettin Erbakan University Faculty of Medicine, Konya, Turkey, **Mustafa Okan**, İstanbulluoğlu, Urology, Mevlana University Faculty of Medicine, Konya, Turkey, **Peter Goldstraw**, Thoracic Surgery, National Heart and Lung Institute, Imperial College, London, UK, **Richard W. Light**, Pulmonary Disease, and Critical Care Med., Vanderbilt University, Tennessee, USA, **Semra Bilaçeroğlu**, Pulmonary Medicine, Izmir Training and Research Hospital for Thoracic Medicine and Surgery, Turkey, **Serkan Altınova**, Urology, Ankara Atatürk Training and Research Hospital, Ankara, Turkey, **Sertaç Yazıcı**, Urology, Hacettepe University School of Medicine, Ankara, Turkey, **Shahinur Rahman**, Thoracic Surgery, Combined Military Hospital, Dhaka, Bangladesh, **Taylan Oksay**, Urology, Süleyman Demirel University Faculty of Medicine, Isparta, Turkey, **Yoshiya Toyoda**, Cardiothoracic Surgery, University of Pittsburgh Physicians, Pittsburgh, USA, **Yusuf Peker**, General Surgery, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey

## Danışma Kurul / Editorial Board

**Abdullah Sivrikaya**, Medical Biochemistry, Selçuk University Faculty of Medicine, Konya, Turkey, **Abidin Kılınçer**, Radiology, Hacettepe University Faculty of Medicine, Ankara, Turkey, **Abuzer Coşkun**, Emergency Medicine, Cumhuriyet University Faculty of Medicine, Sivas, Turkey, **Ahmet Aslan**, Orthopedics and Traumatology, Afyonkarahisar State Hospital, Afyonkarahisar, Turkey, **Ahmet Gürdal**, Cardiology, İstanbul University Faculty of Medicine, İstanbul, Turkey, **Ahmet Oğuz Hasdemir**, General Surgery, Dışkapı Yıldırım Beyazıt Training and Research Hospital, Ankara, Turkey, **Ahmet Şengün**, Ophthalmology, Ufuk University Faculty of Medicine, Ankara, Turkey, **Ahmet Tolgay Akıncı**, Neurosurgery, Trakya University Medical Faculty, Edirne, Turkey, **Ahmet Uysal**, Obstetrics and Gynecology, Onsekiz Mart University Faculty of Medicine, Çanakkale, Turkey, **Ali Ataş**, Pediatric, Harran University Faculty of Medicine, Şanlıurfa, Turkey, **Ali Kılıçgün**, Thoracic Surgery, Abant İzzet Baysal University Faculty of Medicine, Bolu, Turkey, **Alime Güneş**, Ophthalmology, Suleyman Demirel University Faculty of Medicine, Isparta, Turkey, **Alper Gözübüyük**, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Atilla Karateke**, Obstetrics and Gynaecology, Hatay Antakya State Hospital, Hatay, Turkey, **Aylin Fidan Korcum**, Radiation Oncology, Akdeniz University Faculty of Medicine, Antalya, Turkey, **Aynur Özen**, Nuclear Medicine, Bağcılar Training and Research Hospital, İstanbul, Turkey, **Ayşe İnci**, Infectious Diseases and Clinical Microbiology, Artvin State Hospital, Artvin, Turkey, **Ayşe Neslin Akkoca**, Family Medicine, Faculty of Medicine, University of Mustafa Kemal, Hatay, Turkey, **Ayşe Nur Demiral**, Radiation Oncology, Faculty of Medicine, University of Dokuz Eylül, İzmir, Turkey, **Aziz Gümüş**, Pulmonology, Recep Tayyip Erdoğan University Faculty of Medicine, Rize, Turkey, **Berker Özkan**, Thoracic Surgery, İstanbul University Faculty of Medicine, İstanbul, Turkey, **Betül Battaloğlu İnanç**, Family Physician, Mardin Artuklu University, Mardin, Turkey, **Bilgehan Savaşöz**, Cardiothoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Bülent Karaman**, Radiology, Gulhane Military Medical School, Ankara, Turkey, **Burçin Çelik**, Thoracic Surgery, 19 Mayıs University Medical School, Samsun, Turkey, **Cabir Yüksel**, Thoracic Surgery, Ankara University Faculty of Medicine, Ankara, Turkey, **Can Acıpayam**, Pediatric Hematology and Oncology, Mustafa Kemal University School of Medicine, Hatay, Turkey, **Can Kürkçüoğlu**, Thoracic Surgery, Harran University Faculty of Medicine, Şanlıurfa, Turkey, **Cantürk Taşçı**, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Cemil Kavalcı**, Emergency Medicine, Başkent University Faculty of Medicine, Ankara, Turkey, **Emre Delen**, Neurosurgery, Edirne State Hospital, Edirne, Turkey, **Erdal Yekeler**, Thoracic Surgery, Ankara High Specialization Training and Research Hospital, Ankara, Turkey, **Ergün Tozkoparan**, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Ergün Uçar**, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Erkan Vuralkan**, Otolaryngology, Yıldırım Beyazıt Training and Research Hospital, Ankara, Turkey, **Esin Kulaç**, Medical Education, Kocaeli University Faculty of Medicine, Kocaeli, Turkey, **Esmâ Menevşe**, Medical Biochemistry, Selçuk University Faculty of Medicine, Konya, Turkey, **Fatih Ozcura**, Pulmonology, Dumlupınar University Faculty of Medicine, Kütahya, Turkey, **Figen Türk**, Thoracic Surgery, Pamukkale University Faculty of Medicine, Denizli, Turkey, **Gülây Ok**, Anesthesiology, Celal Bayar University Faculty of Medicine, Manisa, Turkey, **Gürhan Öz**, Thoracic Surgery, Afyon Kocatepe University Faculty of Medicine, Afyon, Turkey, **Hacı Bayram Tosun**, Orthopedics and Traumatology, Adıyaman University Faculty of Medicine, Adıyaman, Turkey, **Halit Çınarka**, Pulmonology, Recep Tayyip Erdoğan University Faculty of Medicine, Rize, Turkey, **Harun Çakmak**, Ophthalmology, Adnan Menderes University Faculty of Medicine, Aydın, Turkey, **Hasan Senol Coşkun**, Medical Oncology, Akdeniz University Faculty of Medicine, Antalya, Turkey, **Hatice Eryiğit**, Thoracic Surgery, Dr. Lütfü Kırdar Kartal Training and Research Hospital, İstanbul, Turkey, **İbrahim Haznedaroğlu**, Hematology, Hacettepe University Faculty of Medicine, Ankara, Turkey, **İlknur Balta**, Dermatology, Eskişehir State Hospital, Ankara, Turkey, **İsmail Halili**, Ophthalmologist, Tirana Central Military Hospital, Tiran, Albania, **İsmail Oğuz Kara**, Medical Oncology, Çukurova University Faculty of Medicine, Adana, Turkey, **İsmail Oskay Kaya**, General Surgery, Dışkapı Yıldırım Beyazıt Training and Research Hospital, Ankara, Turkey, **Kenan Ahmet Türkdogan**, Emergency Medicine, Bezmialem University Faculty of Medicine, İstanbul, Turkey, **Koray Aydoğdu**, Thoracic Surgery, Atatürk Training and Research Hospital, Ankara, Turkey, **Kürşad Zengin**, Urology, Bozok University School of Medicine, Tokat, Turkey, **Mahmut Tokur**, Thoracic Surgery, Sütçü İmam University Faculty of Medicine, Kahramanmaraş, Turkey, **Makbule Ergin**, Thoracic Surgery, Gaziosmanpaşa University School of Medicine, Tokat, Turkey, **Mehmet Dakak**, Thoracic Surgery, TOBB ETÜ Hospital, Ankara, Turkey, **Mehmet Fatih Korkmaz**, Orthopedics and Traumatology, İnönü University Faculty of Medicine, Malatya, Turkey, **Melike Ceyhan Balcı Şengül**, Psychiatrist, Pamukkale University Faculty of Medicine, Denizli, Turkey, **Mekin Sezik**, Obstetrics and Gynecology, Suleyman Demirel University Faculty of Medicine, Isparta, Turkey, **Muhammet Reha Çelik**, Thoracic Surgery, İnönü University Faculty of Medicine, Turkey, **Muhammet Sayan**, Thoracic Surgery, Aksaray State Hospital, Aksaray, Turkey, **Muharrem Erol**, Thoracic Surgery, Bursa University Faculty of Medicine, Bursa, Turkey, **Mürteza Çakır**, Neurosurgery, Atatürk University Faculty of Medicine, Erzurum, Turkey, **Mustafa Burak Sayhan**, Emergency Medicine, Trakya University Faculty of Medicine, Edirne, Turkey, **Mustafa Kuzucuoğlu**, Thoracic Surgery, Dr. İ. Şevki Atasagun State Hospital, Nevşehir, Turkey, **Mustafa Yıldırım**, Medical Oncology, Ministry of Health Batman State Hospital, Batman, Turkey, **Nagehan Didem Sarı**, Clinical Microbiology and Infectious Diseases, İstanbul Training and Research Hospital, İstanbul, Turkey, **Nasuh Utku Doğan**, Obstetrics and Gynecology, Akdeniz University Faculty of Medicine, Antalya, Turkey, **Nazif Elaldi**, Clinical Microbiology and Infectious Diseases, Cumhuriyet University Faculty of Medicine, Sivas, Turkey, **Necmettin Tanrıöver**, Neurosurgery, İstanbul University Faculty of Medicine, İstanbul, Turkey, **Nevzat Can Şener**, Urology, Adana Training and Research Hospital, Adana, Turkey, **Okhan Akdur**, Emergency Medicine, Çanakkale Onsekiz Mart University Faculty of Medicine, Çanakkale, Turkey, **Ömer Deniz**, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Ömer Önal**, Thoracic Surgery, Erciyes University Faculty of Medicine, Kayseri, Turkey, **Özcan Hız**, Physical Medicine and Rehabilitation, Ordu Medikalpark State Hospital, Ordu, Turkey, **Özgür Pirgon**, Pediatric Endocrinology and Diabetes, S.Demirel University, Faculty of Medicine, Isparta, Turkey, **Özgür Samancılar**, Thoracic Surgery, Suat Seren Training and Research Hospital, İzmir, Turkey, **Özlem Boybeyi**, Pediatric Surgery, Kırıkkale University Faculty of Medicine, Kırıkkale, Turkey, **Özlem Erten**, Obstetrics and Gynecology, Etlik Zübeyde Hanım Training and Research Hospital, Ankara, Turkey, **Pınar Bıçakçioğlu**, Thoracic Surgery, Atatürk Training and Research Hospital for Chest Disease and Chest Surgery, Ankara, Turkey, **Rasih Yazgan**, Thoracic Surgery, Süleyman Demirel University Faculty of Medicine, Isparta, Turkey, **Raziye Keskin Kurt**, Obstetrics and Gynecology, Mustafa Kemal University Faculty of Medicine, Hatay, Turkey, **Şafak Ersöz**, Pathology, Karadeniz Technical University Faculty of Medicine, Trabzon, Turkey, **Salih Sinan Gültekin**, Nuclear Medicine, Dışkapı Yıldırım Beyazıt Training and Research Hospital, Ankara, Turkey, **Seda Özkan**, Emergency Medicine, Erciyes University Faculty of Medicine, Kayseri, Turkey, **Sedat Abuşoğlu**, Medical Biochemistry, Selçuk University Faculty of Medicine, Konya, Turkey, **Selahattin Bedir**, Urology, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Serdar Evman**, Thoracic Surgery, Süreyyapaşa Training and Research Hospital, İstanbul, Turkey, **Servet Kayhan**, Pulmonary Medicine, Recep Tayyip Erdoğan University, Rize, Turkey, **Şevki Mustafa Demiröz**, Thoracic Surgery, Sütçü İmam University Faculty of Medicine, Kahramanmaraş, Turkey, **Seyfettin Gümüş**, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Sinem Özyurt**, Nuclear Medicine, Dr. Sami Ulus Children Diseases Hospital, Ankara, Turkey, **Songül Çuhadaroğlu**, Thoracic Surgery, Yedikule Training and Research Hospital, İstanbul, Turkey, **Suat Erus**, Thoracic Surgery, Artvin State Hospital, Artvin, Turkey, **Tevfik İlker Akçam**, Thoracic Surgery, Suat Seren Training and Research Hospital, İzmir, Turkey, **Ülkü Yazıcı**, Thoracic Surgery, Atatürk Chest Diseases and Chest Surgery Training and Research Hospital, Ankara, Turkey, **Vildan Kaya**, Radiation Oncology, Süleyman Demirel University School of Medicine, Isparta, Turkey, **Zekeriya Arslan**, Cardiology, Ankara Mevki Military Hospital, Ankara, Turkey.

Secretaries: **Ülker Bora**, **Jim Morgan**. Statistics: **Siddik Arslan**. Graphics and Design: **Beyti Barbaros**. Webmaster: **Murat Ersoy**



## İçindekiler (Table of Contents)

### Olgu Sunumu / Case Report

- 443-445 **Orta Yaşlı Bir Erkek Olguda Spontan Koroner Arter Diseksiyonu Nedeniyle Oluşan Akut Koroner Sendrom**  
Acute Coronary Syndrome Due to Spontaneous Coronary Artery Dissection in a Middle-Aged Man  
Davran Çiçek, Akif Serhat Balcıoğlu, Haldun Müderrisoğlu
- 446-448 **Sağ Sinüs Valsalvadan Çıkan Sol Koroner Arter: Vaka Takdimi**  
Left Coronary Artery Originated from Right Sinus of Valsalva: Case Report  
Kemal Karaağaç, Alkame Akgümüş, Fahriye Vatansver, Erhan Tenekecioğlu, Mustafa Yılmaz
- 449-451 **Ateşli Silah Yaralanmasına Bağlı Vena Kava İnfirior Yaralanması**  
A Successful Treatment of a Patient with Inferior Vena Cava Injuries Due to Gunshot  
İyad Fansa, Cem Lale, Mustafa Uğur, Seçkin Akkücüç
- 452-453 **Konjenital Hipotoninin Nadir Bir Nedeni: Walker Warburg Sendromu**  
A Rare Cause of Congenital Hypotonia: Walker Warburg Syndrome  
Çiğdem Sivrice, Nagehan Aslan, Nihal Olgaç Dündar
- 454-456 **Takayasu Arteritine Bağlı Kronik Ayak Yarası: Multidisipliner Tedavi Uygulanan Olgu**  
Multidisciplinary Treatment Modality of a Patient who has Chronic Wound Related to Takayasu Arteritis  
Tolga Dinç, Selami İlgaç Kayıoğlu, Arife Polat Düzgün, Hikmet Selçuk Gedik, Faruk Coşkun
- 457-459 **Kötü Kontrollü Diyabetik Bir Hastada Hemolitik Anemiye Bağlı Düşük HbA1c Değeri**  
Poorly Controlled Lower HbA1c in Diabetic Patients Due to Haemolytic Anemia  
Bünyamin Aydın, Oğuzhan Aksu, Burçin Özkart, Banu Kale Köröğlü, Mehmet Numan Tamer
- 460-462 **Horner Sendromuna Yol Açan Plazmositom Olgusu**  
A Solitary Plasmocytoma Case Causing Horner Syndrome  
Mustafa Vayvada, Mustafa Akyıl, Serkan Bayram, Mine Demir, Çağatay Tezel
- 463-465 **Adenozin Deaminaz Eksikliğinin Neden Olduğu İki Ağır Kombine İmmun Yetmezlik Olgusu**  
Two Cases of Severe Combined Immunodeficiency Caused By Adenosine Deaminase Deficiency  
Türkan Patroğlü, Hatice Eke Güngör, Himmet Haluk Akar, Ekrem Ünal, Selim Kurtoğlü
- 466-468 **Rinoserebral Mukormikoz: Acil Serviste Nadir Teşhis; Olgu Sunumu**  
Rhino cerebral mucormycosis: A Rare Diagnose for Emergency Room; Case Report  
Hamit Hakan Armağan, Önder Tomruk, Menderes Kıldiran, Giray Aynalı, Ayşe Aynalı
- 469-471 **Testiste Epidermoid Kist ve Testis Koruyucu Cerrahi**  
Testicular Epidermoid Cyst and Testis Sparing Surgery  
Osman Barut, Ahmet Karakeci, Tunc Ozan, Fatih Firdolas
- 472-474 **XXX**  
Traumatic Dissecting Aneurysm of Superficial Temporal Artery: A Case Report  
Ali Rıza Gezici, Yasar Dağıstan, Kamil Gurel, Emine Dağıstan, Nezih Ozkan
- 475-477 **Propiltiourasil Kullanımına Bağlı Hepatotoksik Sarılık ve Steroidle Tedavisi**  
Propylthiouracil Hepatotoxicity Seen with Jaundice and its Treatment by Steroids  
Oğuzhan Aksu, Bünyamin Aydın, Banu Kale Köröğlü, Mehmet Numan Tamer
- 478-480 **Multipl Biliyer Hamartom (Von Meyenburg Kompleksi): Görüntüleme Bulgularıyla Bir Olgu Sunumu**  
Multiple Biliary Hamartomas (Von Meyenburg Complex): A Case Report with Imaging Findings  
İsmail Kartal, Hanifi Bayaroğulları
- 481-483 **Eş Zamanlı Koroner Arter Greftleme ve Lobektomi Cerrahisinde Anestezi Yönetimi: Olgu Sunumu**  
Anesthesia Mangement in Simultaneously Coronary Artery By-Pass Grafting and Lobectomy Surgery: Case Report  
Gökhan Özkan, Mehmet Emin İnce, Suat Doğancı, Vedat Yıldırım
- 484-486 **Behçet Hastalarında Baş Ağrısı Sinüs Ven Trombozu Bulgusu Olabilir**  
Headache Could Be Finding of Sinus Vein Thrombosis in Behcet's Patients  
Halil Murat Şen, Adile Özkan, Çağdaş Balcı, Handan Işın Özışık Karaman
- 487-489 **Künt Travmaya Bağlı Pelvis Kırığı Olmaksızın İliak Arter ve Ven Yaralanması: Nadir Bir Vaka**  
Iliac Artery and Vein Injury Without Pelvic Fracture Due To Blunt Trauma: A Rare Case  
Mustafa Cüneyt Çiçek, Ömer Faruk Çiçek, Kanber Karakurt, Barış Çankaya
- 490-492 **Nadir Bir Olgu: Bruselloza Bağlı İzole Testiküler ve Epidural Apse Birlikteliği**  
A Rare Case: Isolated Testicular and Epidural Abscess Associated with Brucellosis  
Tuğçe Ozlem Kalaycı, Tuna Demirdal, Mehmet Fatih İnci, Melda Apaydın, Mustafa Fazıl Gelal
- 493-495 **Yüksek Ateş ve Hiler Kitle ile Başvuran Tüberküloz Olgusu**  
Tuberculosis Patients Admitted with High Fever and Hilar Mass  
Yusuf Aydemir, Abidin Şehitoğulları, Muzaffer Yılmaz
- 496-498 **Mesaneyeye Rahim İçi Araç Migrasyonu ve Endoskopik Tedavisi; Olgu Sunumu**  
Intrauterin Device Migration to the Bladder and Endoscopic Treatment; Case Report  
İdris Kıvanç Cavıldak, İsmail Nalbant, Ufuk Öztürk, Can Tuğgun, H.N.Göksel Göktuğ
- 499-501 **Yukarı-Ön Çıkışı Sağ Koroner Arter Anomalisinde Primer Perkütan Koroner Girişim**  
Primary Percutaneous Coronary Intervention in Anomalous High Anterior Takeoff Right Coronary Artery  
Adem Bekler, Burak Altun, Ufuk Öztürk, Ahmet Temiz, Emine Gazi
- 502-504 **Vulvar Leiomyom: Nadir Bir Olgunun Sunumu ve Literatürün Gözden Geçirilmesi**  
Vulvar Leiomyoma: Report of a Rare Case and Review of the Literature  
Fikriye Işıl Adıgüzel, Cevdet Adıgüzel, Selim Mısırlıoğlü, Sevtap Seyfettinoğlü, Pelin Demirtürk
- 505-507 **Multiorgan Tutulumu Gösteren Dev Retroperitoneal Liposarkom**  
Giant Retroperitoneal Liposarcoma with Multi-Organ Involvement  
Mustafa Ugur, Cem Oruc, Seckin Akkucuk, Yavuz Savaş Koca, Nesrin Atcı
- 508-510 **Kolon Perforasyonuna Neden Olan Morgagni Hernisi Olgusu**  
Colon Perforations Causing Morgagni Hernia Case  
Mustafa Uğur, Seçkin Akkücüç, Cem Oruç, Alperen Kayalı, Akın Aydoğlan

- 511-514** **Retrosternal Guatrlı Bir Olguda Tiroid ve Larinksin Üçlü Primer Malignitesi**  
Triple Primary Malignancies of Thyroid and Larynx in a Case of Retrosternal Guatr  
Seval Erhamamcı, Mehmet Reyhan, Nazım Emrah Kocer, Tuba Canpolat, Naime Altinkaya
- 515-517** **İnsulinoma, Epilepsi Kliniği ile Presente Olabilir: Bir Vaka Raporu**  
Insulinoma May Present as Epilepsy: A Case Report  
Halil Murat Şen, Çağdaş Balcı, Adile Özkan, Handan Işın Özışık Karaman
- 518-520** **Cilt Destruksiyonuna Neden olan Papiller Tiroid Karsinomu Olgusu**  
A Case of Papillary Thyroid Carcinoma Leading to Destruction of The Skin  
Oğuzhan Aksu, Bünyamin Aydın, Banu Kale Köroğlu, Mehmet Numan Tamer
- 521-523** **Subglottik Stenozun Çok Nadir Bir Nedeni: İntratrakeal Malign Olmayan Tiroid Dokusu**  
A Very Rare Cause of Subglottic Stenosis: Non-Malignant Intratracheal Thyroid Tissue  
Ümit Aydoğmuş<sup>1</sup>, Figen Türk<sup>1</sup>, Gökhan Yuncu
- 524-526** **İntraventrüküler Kolistin Tedavisine Bağlı Gelişen Kimyasal Ventrikülit Olgusu**  
A Case of Chemical Ventriculitis Due to Intraventricular Colistin Treatment  
Bayram Ali Dorum, Tayibe Bal, Utku Özer, Fatma Deniz Aygün, İbrahim Şilfeler
- 527-529** **Tiroksin Replasman Tedavisine Dirençli Atipik Çölyak Hastalığı**  
Atypical Celiac Disease Resistant to Thyroxine Replacement  
Oğuzhan Aksu, Bünyamin Aydın, Banu Kale Köroğlu, Mehmet Numan Tamer
- 530-532** **Basit Böbrek Kisti Perkütan Etanol Skleroterapisi Sonrası Gelişen Psoas Absesi**  
A Psoas Abscess After Percutaneous Ethanol Sclerotherapy of Simple Renal Cyst  
Tarık Yonguc, Volkan Sen, İbrahim Halil Bozkurt, Ozgu Aydogdu, İsmail Basmacı
- 533-536** **Şizofreni ve Frontotemporal Demans Birlikteliği: Bir Olgu Sunumu**  
Coexistence of Schizophrenia and Frontotemporal Dementia: A Case Report  
Zafer Subaşı, Altan Eşizoğlu, Ferdi Köşger, Ali Ercan Altınöz
- 537-539** **Atlanmış Posterolateral Köşe Hasarı Sonrası Oluşan Ön Çarpaz Bağ Rerüptürü**  
Anterior Cruciate Ligament Rerupture Due to a Neglected Posterolateral Corner Injury  
Gokay Gormeli, Cemile Ayse Gormeli, Mehmet Fatih Korkmaz, Nurzat Elmali, Emre Ergen
- 540-543** **Chiari Tip 2 Malformasyonu Olan Olguda Nadir Görülen VP Shunt Komplikasyonu**  
Patients with Chiari Malformation Type 2 in VP Shunt Rare Complication  
Tarık Akman, Mustafa Güven, Adem Bozkurt Aras, Öztekin Çıkman, Özbey Şafak, Öznur Karaaslan, Canan Akman, Murat Coşar
- 544-547** **Bir Silikon ve Gore-Tex Ekstrüzyon Olgusunda Titanyum İmplant Medializasyon Laringoplasti Uygulaması**  
Titanium Implant Medialization Laryngoplasty Application in the Case of a Silicone and Gore-Tex Extrusion  
Salih Bakır, Mehmet Akdağ, Aylin Gül, Beyhan Yılmaz, Engin Şengül
- 548-549** **Hipospadias Cerrahisinden Sonra Görülen Üretral Divertikül; Olgu Sunumu**  
Acquired Urethral Diverticulum Following Hypospadias Repair: A Case Report  
Onur Dede, Mansur Dağgüllü, Mazhar Utangaç, Necmettin Penbegül, Gülay Dede
- 550-551** **Uterin Subseröz myomun Spontan Kanamasına Bağlı Hemoperitoneum: Olgu Sunumu**  
Hemoperitoneum From Spontaneous Bleeding of a Uterine Subserous Leiomyoma: A Case Report  
Hacer Uyanikoglu, Adnan Incebiyik, Engin Ozturk
- 552-554** **Serebral Palsılı Hastada Parmak Amputasyonu Sırasında Verilen Nitröz Oksid Sonrası Gelişen Pnömocefali**  
In a Cerebral Palsy Patient During Finger Amputation Given the Nitrous Oxide After Occuring Pneumocephalus  
Tarık Akman, Mustafa Güven, Adem Bozkurt Aras, Canan Akman, Murat Coşar
- 555-557** **İncomplet McCune-Albright Sendromu: Olgu Sunumu**  
Incomplete McCune-Albright Syndrome: A Case Report  
Nagehan Aslan, Tuğba Koca, Özgür Pirgon



## Acute Coronary Syndrome Due to Spontaneous Coronary Artery Dissection in a Middle-Aged Man

### Orta Yaşlı Bir Erkek Olguda Spontan Koroner Arter Diseksiyonu Nedeniyle Oluşan Akut Koroner Sendrom

Spontan Koroner Arter Diseksiyonu Nedenli NSTEMI / NSTEMI due to Spontaneous Coronary Artery Dissection

Davran Çiçek<sup>1</sup>, Akif Serhat Balcıoğlu<sup>1</sup>, Haldun Müderrisoğlu<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Başkent Üniversitesi Alanya Uygulama ve Araştırma Merkezi, Kardiyoloji Anabilim Dalı, Antalya

<sup>2</sup>Başkent Üniversitesi Tıp Fakültesi, Kardiyoloji Anabilim Dalı, Ankara, Türkiye

#### Özet

Gerçek spontan koroner arter diseksiyonu, akut koroner sendromların oldukça nadir ancak önemli bir sebebidir. Literatürde yaklaşık 200 vaka bildirilmiştir. Otopsi sırasında tanınması sıktır. Risk faktörleri arasında oral kontraseptif kullanımı, aterosklerotik hastalık, fibromusküler displazi ve peripartum dönem vardır. Sağlıklı genç bir hasta akut miyokardiyal iskemi sendromu ile başvurmuşsa etyolojide spontan koroner arter diseksiyonu mutlaka düşünülmelidir. Ani ölüme neden olabileceği için zamanında tanı ve müdahale yapılması gereklidir. Biz bu yazıda, bilinen risk faktörlerine sahip olmayan ve non-invaziv (konservatif) olarak tedavi edilen bir spontan koroner arter diseksiyonu olgusunu sunuyoruz.

#### Anahtar Kelimeler

Koroner Arter Diseksiyonu; ST Segment Elevasyonu Olmayan Miyokard Enfarktüsü

#### Abstract

True spontaneous coronary artery dissection (SCAD) is an extremely rare but important cause of acute coronary syndrome, with only about 200 cases reported in the literature. Diagnosis is often made at autopsy. Risk factors include oral contraceptive use, atherosclerotic disease, fibromuscular dysplasia and the peripartum period. SCAD should be considered when a healthy young patient presents with the onset of acute myocardial ischemic syndrome. A timely diagnosis and intervention are mandatory as SCAD can cause sudden death. We present a case of SCAD without identifiable risk factors which was successfully treated with non-invasive conservative therapy.

#### Keywords

Coronary Artery Dissection; Non-ST Segment Elevation Myocardial Infarction

DOI: 10.4328/JCAM.2434

Received: 24.03.2014 Accepted: 12.04.2014 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 443-5

Corresponding Author: Davran Çiçek, Başkent Üniversitesi Alanya Uygulama ve Araştırma Merkezi, Kardiyoloji Anabilim Dalı, 07400, Alanya, Antalya, Türkiye.

T.: +90 2425102525 F.: +90 2425115563 E-Mail: davrancicek@myynet.com

## Introduction

Angiographic studies have reported the incidence of spontaneous coronary artery dissection (SCAD) to be between 0.1% and 1.1% [1]. SCAD results in the hemorrhagic separation of the media and creation of a false lumen, with or without an associated tear in the intima. The separated media can force the intimal-medial layer toward the true lumen of the coronary artery, leading to distal myocardial ischemia, infarction and sudden death [1]. Diagnosis is usually made during postmortem examination in cases of sudden death in young victims [2]. The majority of reports are of apparently healthy, young to middle-aged women during the peripartum period or on oral contraceptive therapy (70% of the reported cases) without overt risk for coronary artery disease [3]. We present a case of SCAD in a middle-aged man with non-ST segment elevation myocardial infarction.

## Case Report

A 42 year-old caucasian male without cardiovascular risk factors was admitted to the emergency department for a short episode of chest and left arm pain. There was no history of hypertension, connective tissue disease or family history of cardiac disease. The patient had no clinical signs of Marfan's syndrome or heart failure. Troponin I levels were 2.4 ng/mL at admission and 8.2 ng/mL 4 hours after admission. Antiphospholipid and anti-cardiolipin antibodies were negative. Electrocardiogram did not reveal any changes suggestive of acute ischemia (Figure 1). Echocardiography showed hypokinesia of the apical and mid septum segments.

Coronary angiography demonstrated the absence of atherosclerotic lesions; long spontaneous spiral dissection of the left anterior descending artery from the ostium to the mid part of the vessel with a TIMI grade 2 distal flow (Figure 2), a normal circumflex artery (Figure 3) and a normal right coronary artery. Medical therapy and follow-up of the patient both clinically and with echocardiography was chosen due to the stable hemodynamic conditions and absence of on-going chest pain or ST segment deviation.

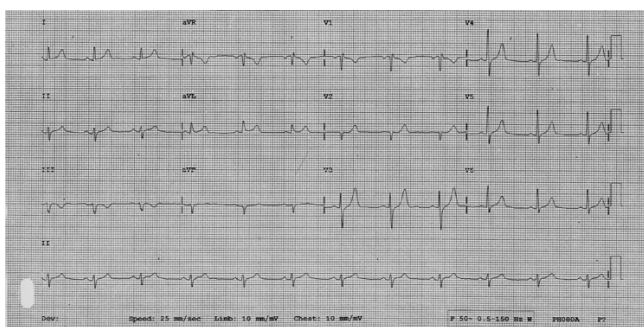


Figure 1. Electrocardiogram of the patient

## Discussion

Spontaneous coronary artery dissection (SCAD) is a rare but fatal cause of acute coronary syndrome [4]. Fewer than 200 cases have been described previously. Of these cases, 70% were females, 38% of which occurred during the third trimester of pregnancy or the early postpartum period [3]. Other risk factors associated with SCAD are oral contraceptive use [5], antiphospholipid syndrome [6], connective tissue disorder [7],



Figure 2. Long dissection flap of the left anterior descending artery from ostial to mid part of the vessel

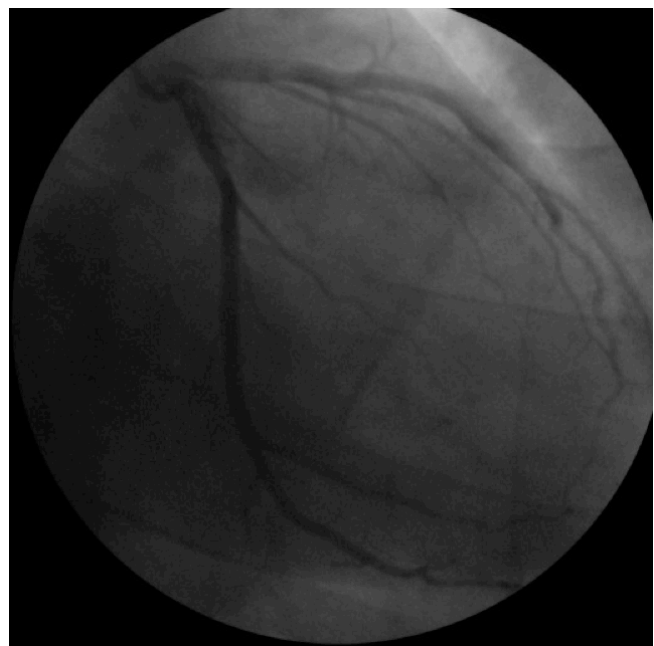


Figure 3. Normal circumflex coronary artery

fibromuscular dysplasia [8], cocaine use [9] and physical exertion [10]. Approximately half of all patients are under 40 years of age [11]. The clinical presentation of SCAD depends on the extent and rate of dissection as well as the degree of myocardial ischemia. Sudden death occurs in up to 50% of cases, particularly in those with left main coronary artery dissection [11]. Intimal dissection is usually found in patients with significant preexisting atherosclerosis. In other cases, the plane of dissection in SCAD usually lies within the outer third of the tunica media or between the media and adventitia [11]. Left coronary artery dissections are more common in women, with the left anterior descending artery involved in 75% of cases [12]. Several treatment modalities have been reported for the management of SCAD. Clinical outcomes are related to clinical presentation, hemodynamic conditions of the patient, involvement of



one or more vessels with residual coronary flow and tenting procedures [13]. ST elevation MI presentation in the anterior leads, lesion length, vessel size, TIMI flow grade, and presence of intimal flap or hematoma was found to determine the choice for revascularization strategy. However, no difference was observed between the conservative therapy and coronary revascularization groups [13]. Accordingly, conservative management is advisable for patients that are asymptomatic and stable, as in the current case. Successful revascularization in acutely unwell patients, in the form of percutaneous coronary intervention [14] or coronary artery bypass grafting [15], have been described in the literature. Thrombolysis can be devastating if administered in the presence of SCAD [16]. The cornerstone of treatment to prevent recurrent thrombosis is anticoagulation.

In conclusion, SCAD is a rare but dramatic condition that can cause myocardial infarction and/or sudden death in young and middle-aged individuals. Prompt diagnosis and early institution of appropriate treatment are usually associated with a favorable outcome. It is important to consider that conservative treatment alone may be sufficient in clinically stable SCAD patients.

### Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

### References

1. Kaminemi R, Sadhu A, Alpert J. Spontaneous coronary artery dissection: report of two cases and a 50-year review of the literature. *Cardiol Rev* 2002;10:279–84.
2. Cohen DE, Strimike CL. A case of multiple spontaneous coronary artery dissections. *Cathet Cardiovasc Interv* 2000;49:318–20.
3. Koul AK, Hollander G, Moskovits N, Frankel R, Herrera L, Shani J. Coronary artery dissection during pregnancy and the postpartum period: two case reports and review of literature. *Cathet Cardiovasc Interv* 2001;52:88–94.
4. Kamran M, Guptan A, Bogal M. Spontaneous coronary artery dissection: case series and review. *J Invasive Cardiol* 2008; 20:553–9.
5. Evangelou D, Letsas KP, Korantzopoulos P, Antonellis I, Sioras E, Kardaras F. Spontaneous coronary artery dissection associated with oral contraceptive use: A case report and review of the literature. *Int J Cardiol* 2006;112:380–2.
6. Reed RK, Malaiapan Y, Meredith IT. Spontaneous Coronary artery dissection in a female with antiphospholipid syndrome. *Heart Lung Circ* 2007;16:120–2.
7. Sharma AK, Farb A, Maniar P, Ajani AE, Castagna M, Virmani R, et al. Spontaneous coronary artery dissection in a patient with systemic lupus erythematosus. *Hawaii Med J* 2003; 62:248–53.
8. Saw J, Poulter R, Fung A, Wood D, Hamburger J, Buller CE. Spontaneous coronary artery dissection in patients with fibromuscular dysplasia: a case series. *Circ Cardiovasc Interv* 2012;5:134–7.
9. Steinhauer JR, Caulfield JB. Spontaneous coronary artery dissection associated with cocaine use: A case report and brief review. *Cardiovasc Pathol* 2001;10:141–5.
10. Ellis CJ, Haywood GA, Monro JL. Spontaneous coronary artery dissection in a young woman resulting from an intense gymnasium “work-out”. *Int J Cardiol* 1994; 47:193–4.
11. Bateman AC, Gallagher PJ, Vincenti AC. Sudden death from coronary artery dissection. *J Clin Pathol* 1995;48:781–4.
12. Almeda FQ, Barkatullah S, Kavinsky C. Spontaneous coronary artery dissection. *Clin Cardiol* 2004;27:377–80.
13. Bujja P, Coccato P, Fraccaro C, Tarantini G, Isabella G, Almamary A, et al. Management and outcome of spontaneous coronary artery dissection: conservative therapy versus revascularization. *Int J Cardiol* 2013;168:2907–8.
14. Le MQ, Ling FS. Spontaneous dissection of the left main coronary artery treated with percutaneous coronary stenting. *J Invasive Cardiol* 2007;19:E218–21.
15. Thistlethwaite PA, Tarazi RY, Giordano FJ, Jamieson SW. Surgical management of spontaneous left main coronary artery dissection. *Ann Thorac Surg* 1998;66:258–60.
16. Zupan I, Noc M, Trinkaus D, Popovic M. Double vessel extension of spontaneous left main coronary artery dissection in young women treated with thrombolytics. *Catheter Cardiovasc Interv* 2001;52:226–30.

### How to cite this article:

Çiçek D, Balcıoğlu AS, Müderrisoğlu H. Acute Coronary Syndrome Due to Spontaneous Coronary Artery Dissection in a Middle-Aged Man. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 443–5.



## Left Coronary Artery Originated from Right Sinus of Valsalva: Case Report

### Sağ Sinüs Valsalvadan Çıkan Sol Koroner Arter: Vaka Takdimi

Sol Koroner Anomali / Left Coronary Anomaly

Kemal Karaağaç, Alkame Akgümüş, Fahriye Vatanserver, Erhan Tenekecioglu, Mustafa Yılmaz  
Bursa Yüksek İhtisas Education and Research Hospital, Cardiology Clinic, Bursa, Turkey

#### Özet

Tek bir koroner ostiumundan çıkan ve diğer koroner ostiumun olmadığı tek koroner arter (TKA) çoğunlukla asemptomatiktir. Bu konjenital anomalinin bazı tipleri göğüs ağrısı ve ani kardiyak ölüm gibi çeşitli klinik belirtilere neden olabilir. Biz tipik göğüs ağrısı nedeniyle koroner anjiyografi yapılan 50 yaşındaki bayan hastada ortaya çıkan izole TKA sunduk.

#### Anahtar Kelimeler

Koroner Damar Anomalisi; Anjina Pectoris; Koronar Arter Hastalığı

#### Abstract

The "single coronary artery" (SCA) arises from the aortic root by a single coronary ostium and in the absence of another ostium mostly has an asymptomatic course. Some types of this congenital anomaly may cause various clinical manifestations such as chest pain, sudden death. We present a 50-year-old woman whose coronary angiography for typical chest pain revealed an isolated SCA.

#### Keywords

Coronary Vessel Anomalies; Angina Pectoris; Coronary Artery Disease

DOI: 10.4328/JCAM.3270

Received: 27.01.2015 Accepted: 12.02.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 446-8

Corresponding Author: Kemal Karaağaç, Kardiyoloji Kliniği, Bursa Yüksek İhtisas Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Yıldırım, Bursa, Turkey.

T.: +90 2242605050 F.: +90 2243605055 E-Mail: drkaraagac2001@gmail.com

## Introduction

Coronary artery anomalies occur in 0.2 -1.2% of the general population [1]. Clinical significance of such findings has been speculated and a few variants implicated as a cause of sudden death, especially in young athletes. The left main coronary artery arising from the right sinus of Valsalva is found in 0.03% [2].

## Case Report

A 50-year-old female patient was admitted to our polyclinic with exertional chest pain. She stated that the pain radiating to the left arm for the last 2 to 4 months and was starting after walking about 150 meters and was recovering with resting for 10 to 15 minutes. The patient had several coronary risk factors including age, smoking and hypertension. He had used Amlodipin for the last nine months. The patient's electrocardiogram was in sinus rhythm and rate was 75 beats/min; there were not any other features. There was no pathological finding detected in the patient's transthoracic echocardiography. 170/100 mmHg of blood pressure was measured on physical examination. The effort stress test was terminated and evaluated as symptom (chest pain)-positive at the end of the second stage of test. The patient underwent coronary angiography revealing a SCA originating from the right sinus of Valsalva and we could not demonstrate the significant narrowing of all the coronary artery (figure 1,2). Beta-blocker and angiotensin converting inhibitor was added to her treatment. Our patient had typical chest pain, and the decision to administered surgery was made since there was no regression despite intensive medical treatment.

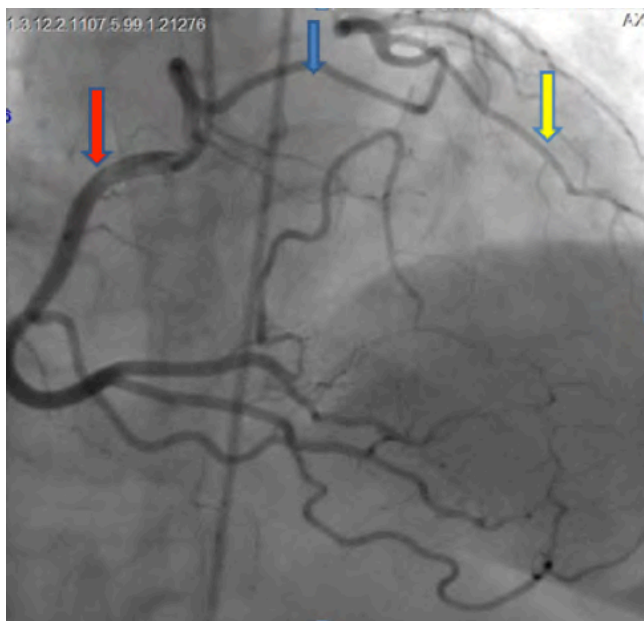


Figure 1. The left descending coronary artery (yellow arrow) and circumflex artery (blue arrow) does not originate from left coronary sinus, where it originates from the right coronary artery (red arrow).

## Discussion

Coronary artery anomalies are quite rare, and discovered incidentally during coronary angiography or autopsy. Very infrequent type is a type in which all coronary artery systems are originated from one location [1].

Lipton classified single coronary artery anomalies angiographi-

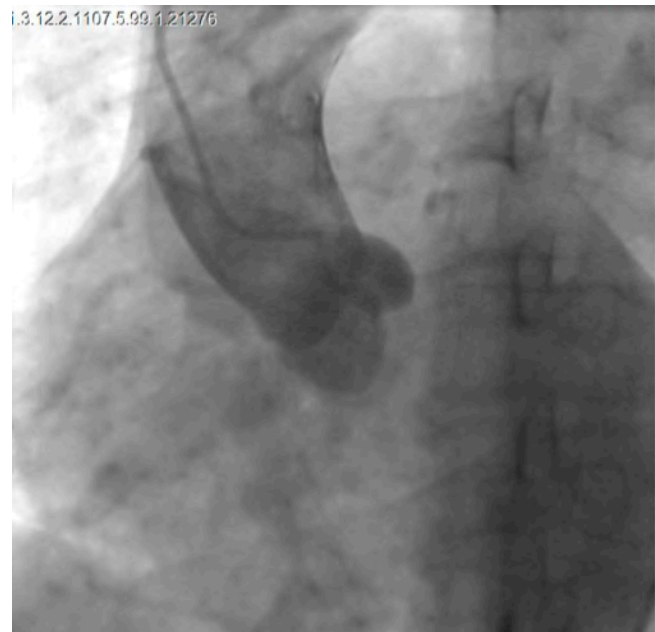


Figure 2. Aortography in the left anterior oblique view demonstrating absence of left coronary ostium in the left sinus of Valsalva.

cally according to the origin whether being right or left coronary artery, the anatomical distributions on ventricular surface and the relationship with the ascending aorta and the pulmonary artery. According to classification, in single coronary anomalies arose from right sinus of Valsalva (that gives anomaly the first letter R), left system may originate from its distal after the natural course of right coronary artery (R-1 type) or may arise from the proximal root as an another artery (left main coronary artery R-2 type) or may bifurcate from proximal root as two different arteries, left anterior descending and circumflex (R-3 type) [3]. Our case was found to be consistent with R-3 type.

The single coronary artery anomaly is usually asymptomatic, but may present as myocardial ischemia, syncope, or sudden cardiac death depending on its course and the presence and severity of atherosclerosis. Increased tendency of atherosclerosis have also been reported in cases with SCA anomalies [4]. Myocardial ischemia or sudden cardiac death are usually associated with its course between the aorta and main pulmonary artery [5]. The treatment strategy for SCA is not clear. The course and associated coronary atherosclerosis should guide the therapy. Coronary artery bypass surgery may be beneficial in patients whose anomalous coronary artery courses between the aorta and main pulmonary artery or/and patients with atherosclerosis may benefit from revascularization strategies. Successful percutaneous coronary intervention has also been reported in some cases [6,7].

In conclusion, SCA anomaly is a rarely, which may cause chest pain without atherosclerosis., The treatment strategy of SCA is still controversial and there are no studies comparing surgical with medical treatment and long-term follow-up studies are needed.

## Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

## References

1. Yamakama O, Hobbes RE. Coronary anomalies in 126,595 patients undergoing

- coronary arteriography. Cathet Cardiovasc Diagn 1990; 21(1):28-40.
2. Fernandes ED, Kadivar H, Hallman GL, Reul GJ, Ott DA, Cooley DA. Congenital malformation of the coronary arteries: the Texas Heart Institute experience. Ann Thorac Surg 1992;54(4):732-40.
  3. Lipton MJ, Barry WH, Obrez I, Silverman JF, Wexler L. Isolated single coronary artery: diagnosis, angiographic classification, and clinical significance. Radiology 1979;130(1):39-47.
  4. Akgüllü Ç, Sural S, Eryılmaz U, Güngör H, Zencir C. Single Coronary Artery Anomaly Causing Chest Pain. Koşuyolu Heart Journal 2014;17(3):192-94.
  5. Shirani J, Roberts WC. Solitary coronary ostium in the aorta in the absence of other major congenital cardiovascular anomalies. J Am Coll Cardiol 1993;21(1):137-43.
  6. Raddino R, Pedrinazzi C, Zanini G, Leonzi O, Robba D, Chieppa F, et al. Percutaneous coronary angioplasty in a patient with anomalous single coronary artery arising from the right sinus of Valsalva. Int J Cardiol 2006;112(3):e60-2.
  7. Karaağaç K, Özlük Ö, Yılmaz M, Arslan B, Topal D. Isolated Single Coronary Artery Originating From A Single Right Coronary Ostium in A Patient with Non ST-Segment Elevation Myocardial Infarction. Kocatepe Medical Journal 2013;14(3):154-6.

**How to cite this article:**

Karaağaç K, Akgümüş A, Vatanserver F, Tenekecioğlu E, Yılmaz M. Left Coronary Artery Originated from Right Sinus of Valsalva: Case Report. J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 446-8.



## A Successful Treatment of a Patient with Inferior Vena Cava Injuries Due to Gunshot

### Ateşli Silah Yaralanmasına Bağlı Vena Kava İnferior Yaralanması

Vena Kava Yaralanması / Vena Cava Injuries

İyad Fansa<sup>1</sup>, Cem Lale<sup>1</sup>, Mustafa Uğur<sup>2</sup>, Seçkin Akküçük<sup>2</sup>  
<sup>1</sup>Kalp ve Damar Cerrahisi, <sup>2</sup>Genel Cerrahi, Mustafa Kemal Üniversitesi Tıp Fakültesi, Hatay, Türkiye

Bu yazının özeti 30 Ekim-2 Kasım 2014'de 13. Türk Kalp ve Damar Cerrahisi Derneği Kongresinde poster olarak sunulmuştur.

#### Özet

Vena kava inferior yaralanmaları genellikle multipl organ ve sistem yaralanmaları ile birlikte görülür. Aşırı kanamadan dolayı hemodinamik instabilitenin hızla gelişmesi bu tip yaralanmalarda ölüm oranlarının yüksek seyretmesine neden olmaktadır. Bu hastaların tedavisinde hasar kontrol cerrahisi ilkelerini iyi uygulayan bir çok cerrahi disiplinin hızlı ve uyum içinde çalışmasının yanında hemodinamik stabilitenin sağlanması için iyi bir yoğun bakım desteğine ihtiyaç bulunmaktadır. Bu yazıda ateşli silahla yaralanma sonucu bir ilçe hastanesinde laparotomi yapılarak multipl organ yaralanması yanında vena kava inferiorda yaralanma tespit edilen hastanın başarılı şekilde yapılan tedavisini sunduk.

#### Anahtar Kelimeler

Vena Kava İnferior Yaralanması; Ateşli Silah Yaralanması; Hasar Kontrol Cerrahisi

#### Abstract

Injuries of inferior vena cava are usually seen with multiple organ and system injuries. The rapid occurrence of hemodynamic instability due to massive hemorrhage leads to high rate of mortality. Concordant and fast approach of multidisciplinary surgical units to perform damage control surgery and efficient intensive care to provide hemodynamic stability are the most important points. We represented a successful treatment of a patient who transferred after laparotomy in another medical center to our hospital due to inferior vena cava and multiple organ injuries.

#### Keywords

Vena Cava Inferior Injury; Gunshot Wounds; Damage Control Surgery

DOI: 10.4328/JCAM.3278

Received: 03.02.2015 Accepted: 12.02.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 449-51

Corresponding Author: Mustafa Ugur, Mustafa Kemal Üniversitesi Tıp Fakültesi, Genel Cerrahi Anabilim Dalı, 31100, Serinyol, Hatay, Türkiye.

T.: +90 3262291000 F.: +90 32624556544 GSM: +905053463209 E-Mail: drmustafaugur@gmail.com

## Giriş

Ateşli silahla yaralanma (ASY) sonucu oluşan vena kava inferior (VKİ) yaralanmalarında çoklu organ hasarının eşlik etmesi, hemodinamik bozukluğun hızla gelişmesi, ciddi cerrahi organizasyon gerektirmesi gibi nedenlerden dolayı mortalite ve morbidite oranları çok yüksek seyretmektedir. Ölüm vakaların %90'ında ilk 24 saat içinde gelişir ve sıklıkla eksplorasyon ve tamir sırasında meydana gelen masif kanamaya bağlıdır [1-5].

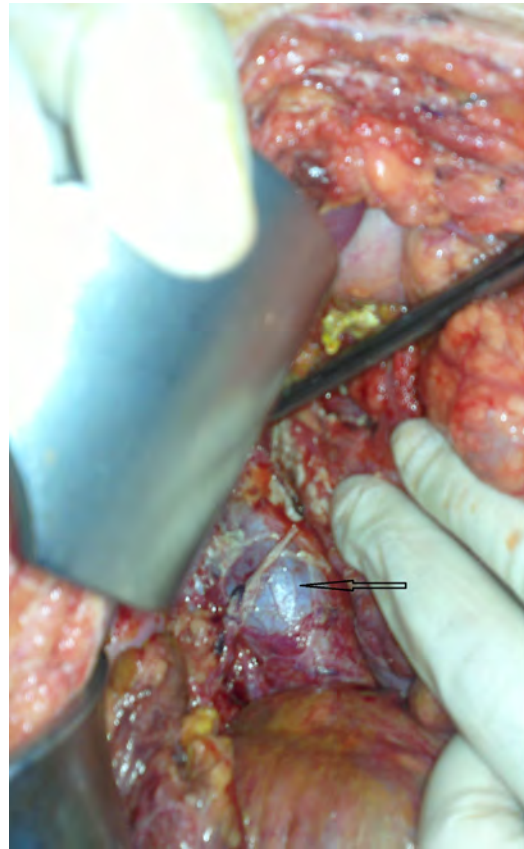
Bu yazıda ASY nedeniyle dış merkezde laparotomi yapılarak VKİ da yaralanma tespit edilen ve kanaması VKİ' a konulan klemplerle kontrol edilerek hastanemize gönderilen hastayı sunduk.

## Olgu Sunumu

Hastanemiz genel cerrahi kliniği bir devlet hastanesinin ameliyathanesinden aranarak ASY bulunan 21 yaşında bir erkek hastanın ameliyata alındığı ve VKİ' da yaralanma tespit edildiği, kanamanın klemplerle kontrol altına alındığı ancak onarım için gerekli ekip ve donanımlarının bulunmadığı bildirildi. Bunun üzerine hasta acil ameliyata alınmak üzere hastanemize kabul edildi. Bu esnada kalp ve damar cerrahisi, anestezi, ameliyathane ve kan bankası ile görüşülerek acil ameliyat için gerekli hazırlıklar tamamlandı. Yaklaşık 40 dakika sonra ambulansla endotraheal olarak entübe edilen hasta getirildi. Hastaya toplam 5 ünite eritrosit süspansiyonu ve 4 ünite taze donmuş plazma verildiği öğrenildi. Hasta doğrudan ameliyathaneye alındı. Yapılan fizik incelemede sistolik kan basıncı 65 mmHg, nabız 135/dk olarak tespit edildi. Sağ meme superior-medialinde ateşli silah giriş deliği bulunduğu ve karın orta hatta laparotomi yapılan kesiden iki adet klempin bulunduğu görüldü. Eksplorasyonda sağ taraf diyafragmada 1 santimetre boyutunda laserasyon bulunduğu, karaciğer segment 7-8'in parçalandığı, mide pilorik bölgede ve duodenom birinci kısmında yaklaşık 1 santimetrelik perforasyon alanı bulunduğu görüldü. VKİ'da ise sağ renal venle birleşim yerinin hemen süperiorunda yaralanma olduğu ve burasının iki adet satinsky klemp ile klempe edildiği görüldü.

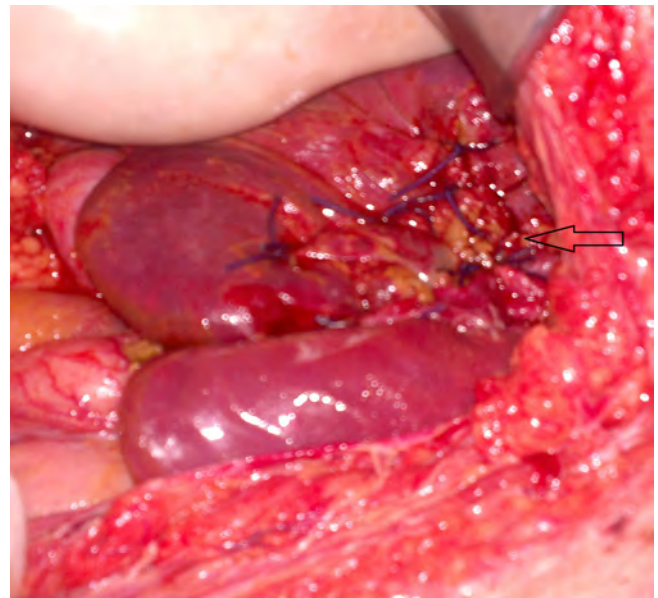
Kalp ve damar cerrahisi tarafından VKİ'un hasara uğrayan segmenti tespit edilerek çevre dokulardan serbestleştirildi. Dış merkezdeki ilk müdahalede körlemesine konulmuş olan iki klempin proksimal ve distalinden damar klempleri konularak yaralanma bölgesi kontrol altına alındı. VKİ' da birbirinin komşuluğunda yaklaşık 1,5 ve 3 santimetre uzunluğunda iki yaralanma yeri 7/0 prolen ile primer olarak onarıldı. Daha sonra genel cerrahi tarafından; diyafragmadaki laserasyon onarıldı ve sağ tüp torakostomi açıldı. Duodenom ve pilor'daki yaralanmalar tek kat devamlı suturelerle onarıldı. Karaciğerdeki parçalanmış segmentlerden kanama ve safra sızıntısının devam ettiği görüldü. Ameliyat esnasında hastanın sistolik kan basıncının düşük (65 mm Hg) olması ve ciddi asidoz (arteryel pH 7,12) bulunmasından dolayı karaciğerle diyafragma arasına kompresler konularak packing yapıldı. Cilt sütüre edilerek hasta entübe şekilde yoğun bakıma alındı.

Yoğun bakımda 48 saat süreyle takip edilen hasta hemodinamik stabilitenin sağlanması üzerine ikinci ameliyata alındı. Ameliyatta VKİ' daki onarım yerinde herhangi bir darlık yada torsiyon olmadığı görüldü (Resim 1). Önceki ameliyatta konulan kompresler çıkarıldığında karaciğerdeki kanama ve safra sızıntısının devam ettiği görüldü. Karaciğer hilusunda hepatic arter, portal ven ve koledok vasküler bir klemple kapatılarak Pringle ma-



Resim 1. Vena Kava İnférieurun (OK) onarımdan iki gün sonraki görüntüsü.

nevrası yapılarak kanama kontrol altına alındı. Parçalanmış karaciğer dokuları debride edildi. Karaciğere multipl sutureler konulduktan sonra Pringle manevrası sonlandırıldı (Resim 2). Kanama ve safra sızıntısının olmadığına görülmesi üzerine ame-



Resim 2. Karaciğerde segment 7-8' de ki (OK) yaralanmaya konulmuş multipl sutureler

liyata son verilerek hasta tekrar yoğun bakıma alındı. Hemodinamik olarak stabil seyreden hasta postoperatif 24. saatte ekstübe edildi ve 48. saatte servise alındı. Karın içindeki drenaj olmaması üzerine postoperatif 5. günde çekildi. Tüp torakostomiden seröz karakterde 150 cc/gün drenajı devam ederken 6. günde hasta bağılı bulunduğu askeri hastaneye

devir edildi. Postoperatif 11. günde hastanın sorunsuz olarak taburcu edildiği öğrenildi.

### Tartışma

Karın içi büyük damar yaralanmalarının çoğu ateşli silah yaralanmaları ile olmakta ve bu yaralanmalara çoklu organ hasarı eşlik etmektedir. VKİ yaralanmalarında mortalite yüksek olup %65'e kadar çıkmaktadır [4]. Tüm hastaların yaklaşık %30-50 si hastaneye yetiştirilemeden, hastaneye yetişenlerin ise yaklaşık %30'u yaralanmaya bağlı olarak gelişen ciddi kanama sonucunu hayatını kaybetmektedir [5]. Ciddi abdominal travma geçiren hastaların mortalite ve morbidite oranlarını belirleyen faktörler hastaların tedavi merkezlerine ulaşma süresi, acil ünite-sinden ameliyata alınma süresi, şok tablosunda olup olmadıkları, eşlik eden ciddi organ ve vasküler yaralanma varlığı, yapılan kan transfüzyon miktarı ve VKİ' daki yaralanma yeri olarak bildirilmiştir [1, 6].

Sunduğumuz hasta yaralanmadan yaklaşık 50 dakika sonra ilk ameliyat yapılan merkeze ulaştırılmıştı. Hastanemize ulaştığında hipovolemik şok bulguları (hipotansiyon, taşikardi, zayıf nabız) mevcuttu ve hasta doğrudan ameliyathaneye alındı. Sağ toraksta ateşli silah giriş deliği bulunmaktaydı. Diyafragma, karaciğer, pilor ve duodenumdaki yaralanmalar VKİ' daki yaralanmaya eşlik etmekteydi. VKİ suprarenal alandan yaralanmıştı. Hastaya 5 ünite eritrosit süspansiyonu verilmişti.

VKİ yaralanması bulunan hastalarda kanamaya bağlı gelişen hipovolemik şok tarafından indüklenen asidoz, hipotermi ve koagulopatini sebep olduğu ölüm triadını önlemek önemlidir [7]. Cerrahinin amacı kanamayı durdurmak, patent ve torsiyone olmayan bir VKİ' a ulaşmak olmalıdır. Bunun için ilk seçenek venin primer olarak onarımıdır. Ölüm triadı gelişen hastalarda primer onarım yapılamıyorsa venöz yama, sentetik greft gibi karmaşık işlemlerden kaçınmak gerekir. Bu hastalarda VKİ ligasyonu yapılabilir [8].

Sunduğumuz hasta hemodinamik olarak stabil değildi (sistolik kan basıncı 65 mmHg, arteryel pH 7,12). VKİ' daki yaralanma suprarenal bölgedeydi ve primer onarım açısından uygun görünmekteydi. Bu nedenle primer onarım yapılarak kanama kontrol altına alındı. Onarım sonrasında darlık ya da torsiyon gelişmediği görüldü. Diyafragma, pilor ve duodenumdaki yaralanmalar tek kat devamlı süturlarla onarıldı. Bu esnada tüp torakostomi açıldı. Ameliyat süresini uzatmamak için karaciğerdeki kanama ve safra sızıntılarını kontrol etmek için packing yöntemi kullanıldı. Ameliyat 50 dakika sürdü.

### Sonuç

VKİ yaralanmaları genellikle diğer sistem ve organların ciddi yaralanmaları ile birlikte görülmektedir. Bu nedenle birçok disiplinin hızlı ve uyum içinde çalışmasını gerektirmektedir. Ciddi travmaya maruz kalan hastaların tedavisinde uygulanan her aşama hayati öneme sahiptir. Özellikle hemodinamik instabilite gelişen hastalarda hasar kontrol cerrahisi tekniklerinin kullanılması ölüm triadının gelişmesini önleyebilir. Yeterli ekipman ve donanımın bulunmadığı merkezlerde ise bu tip yaralanmalarla karşılaşıldığında kanama klempler yada kompreslerle durdurulduktan sonra gönderilecek kurum haberdar edilerek hastanın hızlı bir şekilde transferi hayat kurtarabilir.

### Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

### Kaynaklar

1. İnan B, Aydın Ü, Erkalp K, Yaşar T, Başel H. Vena kava inferiyör yaralanmalarına cerrahi yaklaşım. Türk Göğüs Kalp Damar Cer Derg 2011;19(3):366-70.
2. Graham JM, NMattox KL, Beall AC. Traumatic injuries of the inferior vena cava. Arch Surg 1978;113(4):413-8.
3. Buckman RF, Pathak AS, Badellino MM, Bradley KM. Injuries of the inferior vena cava. Surg Clin North Am 2001;81(6):1431-47.
4. Hansen CJ, Bermadas C, West MA, Ney AL, Muehlstedt S, Cohen M, et al. Abdominal vena caval injuries: outcomes remain dismal. Surgery 2000;128(4):572-8.
5. Huerta S, Bui TD, Nguyen TH, Banimahd FN, Porral D, Dolich MO. Predictors of mortality and management of patients with traumatic inferior vena cava injuries. Am Surg 2006;72(4):190-6.
6. Bedirli A, Sözüer EM, Şakrak Ö, Yılmaz Z, Kerek M. Abdominal büyük damar yaralanmaları. Ulusal Travma Acil Cerrahi Derg 1999;5(2):116-9.
7. Navsaria PH, de Bruyn P, Nicol AJ. Penetrating abdominal vena cava injuries. Eur J Vasc Endovasc Surg 2005;30(5):499-503.
8. Van Rooyen PL, Karusseit VO, Mokoena T. Inferior vena cava injuries: A case series and review of the South African experience. Injury 2015;46(1):71-5.

### How to cite this article:

Fansa İ, Lale C, Uğur M, Akkücüük S. A Successful Treatment of a Patient with Inferior Vena Cava Injuries Due to Gunshot. J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 449-51.



## A Rare Cause of Congenital Hypotonia: Walker Warburg Syndrome

### Konjenital Hipotoninin Nadir Bir Nedeni: Walker Warburg Sendromu

Walker Warburg Sendromu / Walker Warburg Syndrome

Çiğdem Sivrice<sup>1</sup>, Nagehan Aslan<sup>1</sup>, Nihal Olgaç Dündar<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Pedatri AD, Süleyman Demirel Üniversitesi, Isparta,

<sup>2</sup>Pedatrik Nöroloji BD, Katip Çelebi Üniversitesi Tıp Fakültesi, İzmir, Türkiye

48. Türk Pedatri Kongresi, Mayıs 2014, Antalya, Türkiye

#### Özet

Walker-Warburg sendromu (WWS), otozomal resesif geçişli tip 2 lizensefali, serebellar anomali, retinal anomali ve konjenital musküler distrofi ile karakterize nadir görülen bir kas hastalığıdır. Bu makalede aralarında 1. derece akraba evliliği olan anne ve babadan doğan ve emme zayıflığı şikayetiyle hastanemize getirilen, fizik muayene ve laboratuvar tetkikleri sonucu ağır hipotoni, atipik yüz görünümü, eşlik eden göz ve beyin anomalileri, çok yüksek serum kreatin fosfokinaz düzeyi ile Walker-Warburg sendromu tanısı konulan bir olguyu sunarak hipotonik infant ayırıcı tanısında nadir görülen bu kas hastalığına dikkat çekmek istedik.

#### Anahtar Kelimeler

Hipotoni; İnfant; Walker-Warburg Sendromu

#### Abstract

Walker-Warburg syndrome (WWS) is an autosomal recessive rare muscle disease which characterized by type 2 lissencephaly, cerebellar abnormalities, and congenital muscular dystrophy of the retinal abnormalities. In this article, we described a patient who born from 1st degree consanguineous marriage mother and father and admitted to our hospital suction weakness and had been diagnosed Walker- Warburg syndrome with physical examination and laboratory tests as a result of severe hypotonia, atypical facial appearance, accompanying eye and brain abnormalities are very high serum creatine phosphokinase levels and wanted to draw attention to this rare muscle disease in the differential diagnosis of hypotonic infants.

#### Keywords

Hypotonia; Infant; Walker-Warburg Syndrome

DOI: 10.4328/JCAM.3288

Received: 04.02.2015 Accepted: 14.02.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 452-3

Corresponding Author: Nagehan Aslan, Pedatri AD, Süleyman Demirel Üniversitesi, Tıp Fakültesi Hastanesi, Çünür, 32000, Isparta, Türkiye.

GSM: +905055499986 E-Mail: nagehan\_aslan@hotmail.com



## Giriş

Walker-Warburg sendromu (WWS) serebral, serebellar, göz ve kas anomalileri ile karakterize, letal seyirli ve vakaların erken dönemde kaybedildiği otozomal resesif kalıtmı bir hastalıktır. 1.2/100000 oranında görülür. İlk kez Walker tarafından 1942'de letal infantil lizensefali olarak tanımlanmış ve bundan 30 yıl sonra da Warburg, hidrosefali ve konjenital retinal ayrılmanın birlikte olduğu bir grup hasta bildirerek bu hastaların çoğunun 5 aylıktan önce kaybedildiğine dikkat çekmiştir. 1975'de Chemke ve arkadaşları ise akraba evliliği olan bir ailedeki iki olgu nedeniyle otozomal resesif kalıtımın varlığını ileri sürmüşlerdir. Daha sonra hidrosefali, agri, retinal displazi, ± ensefalosel birlikteliğini tanımlayan H.A.R.D. ± E terimi kullanılmış [1-3], ayrıca cerebro-ocular dysplasia-muscular dystrophy (COD-MD) terimi de kullanılmış ancak 1989'da Dobyns ve ark. 42 olgu üzerinde yaptıkları bir çalışmada sendromun Walker-Warburg sendromu adı ile tanınmasını önermişler ve tanı için tip II lizensefali, serebellar anomali, retinal anomali ve konjenital müsküler distrofiye oluşan 4 kriterin gerekli olduğunu öne sürmüşlerdir [4]. Konjenital müsküler distrofiler içinde en ağır seyirli form olan hastalık genellikle yenidoğan dönemi ve süt çocukluğunda bulgu verir ve hastaların çoğu 3 yaşından önce kaybedilir [5].

Bu olguyu sunmadaki amacımız hipotoni ayırıcı tanısında nadir bir kas hastalığı olan Walker-Warburg sendromunu hatırlatmak ve otozomal resesif geçişli, letal bir sendrom olması nedeni ile akraba evliliği yapan ailelere genetik danışma vermenin önemi ni vurgulamaktır.

## Olgu Sunumu

Yirmi sekiz yaşındaki annenin 4. gebelikten 2. yaşayan çocuğu olarak 38. gestasyonel haftada düşük APGAR ile 3370 gram doğan kız bebek beslenmede azalma şikayeti ile getirildi. Anne ve baba arasında 1. dereceden akrabalık öyküsü ve annenin 16 haftalık Dandy-Walker sendromu nedeni ile sonlandırılmış gebelik ve 15 günlükken hidrosefali, galen ven anevrizması, kalp yetmezliği nedeni ile operasyon sonrası kaybedilen erkek çocuk öyküsü mevcuttu. Fizik muayenesinde makrosefali (baş çevresi: 46 cm), hipotoni ve pektus ekskavatum saptandı. İntrauterin hidrosefali tanısı ile takipli olan hastanın takibinde baş çevresi ölçümlerinde hızlı artış saptanması üzerine çekilen bilgisayarlı beyin tomografisinde her iki ventriküler sistemi ve hornları ileri derecede geniş saptandı ve ventriküloperitoneal şant takıldı. Göz konsültasyonunda mikroftalmi ve her iki gözünde konjenital katarakt saptandı. Beyin manyetik rezonans görüntülemesinde Tip 2 lizensefali, korpus kallosum agenezisi, kolposefali, agiri ve bilateral dilate ventriküller mevcuttu. Metabolik hastalık açısından gönderilen Tandem-mass, idrar kan aminoasitleri, kan gazı, biyokimyasal parametreleri normaldi. Karyotip analizi 46, XX olarak sonuçlandı. Ayırıcı tanı açısından gönderilen TORCH serolojisi negatif sonuçlandı. Hastanın serum fosfokinaz düzeyi: 2029 U/L saptandı. Hastada klinik ve laboratuvar bulguları ile Walker-Warburg sendromu düşünüldü ve genetik analiz planlanan hasta 7 aylıkken eksitus oldu.

## Tartışma

Walker-Warburg sendromu göz ve beyin bulguları ile seyreden, yüksek kreatin fosfokinaz düzeyleri ile karakterize, letal seyirli bir konjenital müsküler distrofidir [6]. Distroglipopatiler içerisinde

de yer alır. Distroglipopatiler konjenital müsküler distrofinin fenotipik özelliklerine ek olarak mental retardasyon, hipotoni, hidrosefali, korpus kallosum agenezisi, agiri, kolposefali, katarakt ve mikroftalmi ile karakterizedir.

Tip II lizensefali, hidrosefali, serebellar hipoplazi, mikroftalmi, gözde iridokorneal anomaliler, katarakt, retinada displastik değişiklikler ve konjenital müsküler distrofi Walker-Warburg sendromu için tanı koydurucu kriterlerdir [1,2].

Olgumuza Tip II lizensefali, hidrosefali, mikroftalmi, katarakt, müsküler distrofi bulguları ile WWS tanısı koyulmuş ve akraba evliliği ve erkek bebek ölümü de otozomal resesif geçişi destekleyen bir öykü olmuştur.

Sendromun ayırıcı tanısında konjenital müsküler distrofiye göz ve beyin anomalilerinin eşlik ettiği Fukuyama tip Konjenital Müsküler Distrofi (FKMD) ile Muscle-Eye-Brain (MEB) hastalığı mutlaka düşünülmelidir [2]. WWS'de klinik FKMD'ye göre daha ağır seyretmekte ve hastalar erken dönemde kaybedilmektedir. FKMD Japonya'da sıklıkla gözlenmektedir. Nöropatolojik değişiklikler değerlendirildiğinde ise septum pellucidum, korpus kallosum ve serebellar vermis agenezisinin WWS'li hastalarda daha sık bulunduğu saptanmıştır [7]. MEB hastalığında ise karakteristik göz anomalisi olarak tüm olgularda ilerleyici miyopi görülmektedir ve klinik seyir WWS kadar ağır değildir [8]. Her üç sendrom da birbirine çok benzemekle birlikte göz ve beyin anomalileri özellik ve şiddet bakımından farklılık göstermektedir.

Otozomal resesif kalıtım gösteren bu sendromda tekrarlamaya riski %25 olup, prenatal ultrasonografi ile erken dönemde sadece santral sinir sistemi malformasyonları tespit edilebilmektedir. Olgumuzda da intaruterin dönemde hidrosefali saptanmıştı. Sonuç olarak olgumuz, göz, kas ve beyin bulgularının bir arada bulunduğu, hipotonik yenidoğanlarda otozomal resesif geçiş gösteren ve letal seyreden bu sendromun ayırıcı tanıda düşünülmesi sonraki gebeliklerde ailelere verilecek genetik danışmanın da önemini vurgulamak için sunulmuştur.

## Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

## Kaynaklar

1. Dobyns WB, Kirkpatrick JB, Hittner HM, Roberts RM, Kretzer FL. Syndromes with lissencephaly II: Walker-Warburg and cerebrooculo-muscular syndromes and a new syndrome with type II lissencephaly. *Am J Med Genet* 1985;22 (1):157-95.
2. Dobyns WB, Pagon RA, Armstrong D, Curry CJ, Greenberg F, Grix A. Diagnostic criteria for Walker-Warburg syndrome. *Am J Med Genet* 1989;32(2):195-210.
3. Vajsar J, Schachter H. Walker-Warburg syndrome. *Orphanet J Rare Dis* 2006;1:29.
4. Semerci C, Şenel S, Okumuş N, Talim B, Üner Ç, Göktepe İ, ve ark. Bir olgu nedeniyle Walker Warburg sendromu ve yeni görüşler. *Gülhane Tıp Dergisi* 2003;45:213-7.
5. Preuss M, Heckmann M, Stein M, Nestler U. Two cases of Walker-Warburg syndrome complicated by hydrocephalus. *Pediatr Neurosurg* 2010;46(1):34-8.
6. Lee CY. Walker-Warburg syndrome: rare congenital muscular dystrophy associated with brain and eye abnormalities. *Hong Kong Med J* 2014;20(6):556
7. Pratap A, Agrawal A, Tiwari A, Lakshmi R, Rajbanshi S. The Walker-Warburg syndrome with cleft lip and palate. *Singapore Med J* 2007;48(2):66-7.
8. Santavuori P, Somer H, Sainio K, Rapola J, Krus S, Nikitin T, et al. Musclee-ye-brain disease (MEB). *Brain Dev* 1989;11(3):147-53.

## How to cite this article:

Sivrice Ç, Aslan N, Dündar N O. A Rare Cause of Congenital Hypotonia: Walker Warburg Syndrome. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 452-3.



## Multidisciplinary Treatment Modality of a Patient who has Chronic Wound Related to Takayasu Arteritis

### Takayasu Arteritine Bağlı Kronik Ayak Yarası: Multidisipliner Tedavi Uygulanan Olgu

Takayasu Arteriti İlişkili Kronik Yara / Chronic Wound Related to Takayasu Arteritis

Tolga Dinç<sup>1</sup>, Selami Ilgaz Kayılıoğlu<sup>1</sup>, Arife Polat Düzgün<sup>1</sup>, Hikmet Selçuk Gedik<sup>2</sup>, Faruk Coşkun<sup>3</sup>

<sup>1</sup> Genel Cerrahi Kliniği, Ankara Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Ankara,

<sup>2</sup> Kalp Damar Cerrahi Kliniği, Ankara Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Ankara,

<sup>3</sup> Genel Cerrahi Kliniği, Hitit Üniversitesi Tıp Fakültesi, Çorum Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Çorum, Türkiye

#### Özet

Takayasu arteriti, damar duvarında inflamasyon ile karakterize, kronik seyirli büyük damar vaskülitidir. Alt ekstremiteyi tutan Takayasu arteriti ve buna bağlı topukta iskemik yara nedeni ile amputasyon önerilmiş olan bir hastadaki multidisipliner tedavi yönetimini sunmayı amaçlamaktayız.

#### Anahtar Kelimeler

Takayasu Arteriti; Vaskülit; Kronik Yara

#### Abstract

Takayasu arteritis is a chronic systemic vasculitis that characterized by the inflammation of large vessels. Our aim to presentate the multidisciplinary treatment modality of a patient who was suggested amputation because of a chronic wound on the foot related with takayasu arteritis.

#### Keywords

Takayasu Arteritis; Vasculitis; Chronic Wound

DOI: 10.4328/JCAM.3287

Received: 04.02.2015 Accepted: 16.02.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 454-6

Corresponding Author: Tolga Dinç, Genel Cerrahi Kliniği, Ankara Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi, B Blok 2. Kat, Altındağ, Ankara, Türkiye.

T.: +90 3125085241 GSM: +905324812275 E-Mail: tolga\_dr@hotmail.com

## Giriş

Takayasu arteriti, Mikito Takayasu tarafından tanımlanmış olup genellikle aorta ve ana dallarını etkileyen sistemik bir vaskülitir [1,2]. Literatürdeki ilk vaka 21 yaşındaki hastada görme kaybı ile tanımlanmış olsa da, bu hastalık çok geniş belirti ve bulgularla seyredilebilen bir hastalıktır [3].

İnflamatuar süreçte damar duvarında plazma hücreleri, lenfositler ve dev hücre infiltrasyonu izlenirken, daha ileri safhalarda fibrozisin oluşmasıyla damar lümeni daralır, ardından da iskemik belirtiler ortaya çıkabilir [4].

Farklı tutulum lokalizasyonu gösteren Takayasu arteritine bağlı, nadir bir klinik prezentasyon olan topukta iskemik yara nedeni ile amputasyon önerilmiş bir hastadaki multidisipliner tedavi yönetimini sunmayı amaçlamaktayız.

## Olgu Sunumu

57 yaşında, takayasu arteriti ve sağ topukta 1 yıldır devam eden kronik yara nedeni ile kardiyovasküler cerrahi kliniğine yatırılan bayan hastanın tedavisine kronik yara merkezinde devam edilmek üzere nakil alındı (Resim-1). Kontrol altında hipertansiyonu haricinde yandaş hastalığı yoktu. Dış merkezde amputasyon önerilen hastanın, kalkaneusunu açıkta bırakan 8x6 cm boyutlarında yarası mevcuttu. Steroid dozu romatoloji kliniğinin önerileri doğrultusunda düzenlendi. Düzenlenen tedavi sonrasında hastanın yarası ve kalkaneusu osteotomi yapılarak debride edildi (Resim-2) ve üzerine ECM bazlı doku skafold materyali (Hyalomatrix®) yerleştirildi (Resim-3). Steroid tedavisi ile akut inflammatuar süreci gerileyen hastaya kalp damar cerrahisi kliniği tarafından Hibrid operasyon yöntemi ve Selektif kök hücre transferi uygulandı (Resim-4). Yara kenarlarından başlayan granülasyonun kemik üzerinde de olduğu gözlemlendi ve granülasyon oluşumu için biyolojik debridman materyali (Hyalogran®) kullanmaya devam edildi (Resim-5). Cilt seviyesine getirilen granülasyon dokusunun üzerine plastik cerrahi kliniği tarafından kısmi kalınlıklı cilt grefti uygulandı. Topuktaki yarası tamamen iyileşen hastanın yara problemi tamamen ortadan kalkmış olup hastanın bir yıldır şikayeti bulunmamaktadır (Resim-6).

## Tartışma

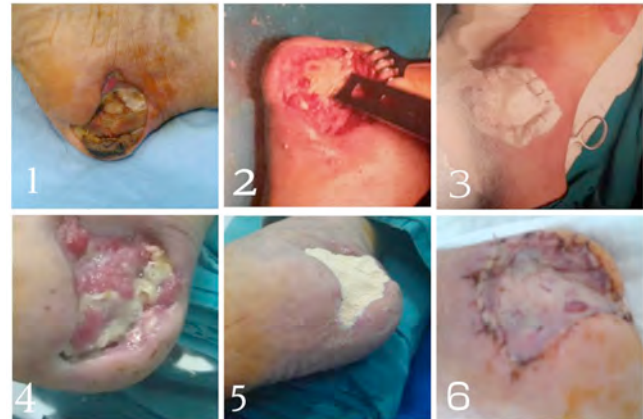
Kronik yaralar; karşımıza genellikle dolaşım bozukluğu veya metabolik nedenlere bağlı olarak çıkmaktadır. Vasküler sebeplerle karşımıza çıkan kronik yaralarda sebep, arteryel veya venöz dolaşım bozukluğudur. Venöz yetersizlikte daha yüzeysel yaralar oluşurken, arteryel yetersizliklerde daha derin dokular etkilenir. Varis ülserleri venöz sebepli yaralara tipik bir örnekken, Takayasu arteritine bağlı alt ekstremitelerde yarası ise arteryel dolaşım bozukluğuna bağlı yaralara örnektir. Alt ekstremitedeki yaraların en sık sebeplerinden biri de diyabettir. Burada temel neden iskemi ve nöropatidir. Bu tarz yaralarda Takayasu arteriti gibi arteryel dolaşım bozukluğuna sekonder gelişen yaralardan farklı olarak, temel neden, duysal nöropatiden dolayı ağrı ve ısı hissinin kaybıdır. Benzer şekilde bu hastalarda da enfeksiyon eğilimi fazladır.

Takayasu arteriti; etyopatogenezi tam olarak aydınlatılmamış, damar duvarında inflamasyon ile karakterize, kronik seyirli büyük damar vaskülitidir. Sıklığı ülkeler arasında farklılıklar gösterse de milyonda 2-3 olduğu düşünülmektedir. Başlıca arkus aorta ve dalları tutulabilir. Damardaki bu inflammatuar hadise-

ler segmental darlık, oklüzyon, dilatasyon ve anevrizmaya sebep olabilmektedir. Tutulan damar lokalizasyonuna göre de farklı semptomlar ortaya çıkabilmektedir [5,6,7]. Bizim sunduğumuz olguda Takayasu arteriti, karakteristik olarak izlenen arkus aorta ve dalları dışında daha nadir izlenen alt ekstremitelerde saptanmıştır. Bununla birlikte klinik prezentasyonu da damar oklüzyonuna bağlı olarak uzun zamandır iyileşmeyen ayak yarası olarak karşımıza çıkmıştır.

Hastalığın tanısında konvansiyonel anjiyografinin yeri çok önemlidir. Arteryel tutulum ve tutulumun yaygınlığı anjiyografi ile izlenebilir. Bizim hastamızda da anjiyografi ile alt ekstremitelerde damar tutulumu izlenmiştir.

Birçok hastalığın tedavisinin temel prensibi olan hasta doktor işbirliği şüphesiz ki bu hastalıkta da çok önemlidir. Diyabette oluşan yaralarda tedavinin temeli yara oluşmasını engellemektir. Bununla beraber şeker regülasyonu ve yaşam şartlarının yeniden düzenlenmesi yaralardan önemli oranda korunmayı sağlar. Arteryel sebepli yaralarda ise temel tedavi iskemik alanın revaskülerizasyonu ve yara bakımı üzerine kuruludur. Venöz yaralarda ise kompresyon, antibiyotik, yara bakımı ve debridman önemli basamaklardır [8]. Takayasu arteriti etyopatolojisinin tam olarak bilinmemesi ve hastalıkla ilgili randomize kontrollü çalışmaların kısıtlı hasta üzerinde yapılması, tedavi protokollerinin kanıt düzeylerinin düşük olmasına yol açmaktadır. Standart tedavi, kortikosteroidler ve immünespresör ajanları içermektedir. Medikal tedaviye ek olarak, zaman zaman başvuru endovasküler cerrahi girişimler de bu hastalığın tedavisinde kullanılmaktadır [9,10]. Bizim hastamız da steroid tedavisi almakta idi. Başvuru anından itibaren, romatoloji kliniğini ile koordineli olarak steroid doz ayarlaması yapıldı. Bu sayede kardiyovasküler cerrahi kliniğince uygulanacak olan endovasküler girişimin, akut dönemde yapılmasının önüne geçilecekti. Cerrahi gereksinimi olan hastalarda bu işlemlerin akut alevlenmeleri yatıştıktan sonra yapılmasının başarı şansını artıracaklarını savunan çalışmalar literatürde mevcuttur [11,12]. Bizim hastamızda da steroid ile inflammatuar hadise geriledikten sonra endovasküler işlem uygulanmıştır. Akut alevlenmenin baskılanmasının önemli olması kadar, hangi hastanın akut alevlenme döneminde olduğunu anlamakta çok önemlidir. Ne var ki, hastalığa "aktive" diyebileceğimiz güvenilir laboratuvar ve klinik parametreler bulunmamaktadır. Bu durumda laboratuvar değerlerinden eritrosit



Resim. Sağ Topukta kalkaneusu açıkta bırakan yara (1). Kalkaneus üzerine uygulanan osteotomi ve debridman (2). Yara üzerine uygulanmış ECM bazlı doku skafold materyali (Hyalomatrix®) (3). Yara kenarlarından başlayan granülasyon dokusunun kemik üzerine kapaması (4). Granülasyon için kullanılan biyolojik debridman materyali (Hyalogran®) uygulaması (5). Granülasyon dokusu üzerine split thickness cilt grefti uygulaması (6).

sedimentasyon hızı, C-reaktif protein ve klinik iskemi bulgularının olup olmaması kullanılabilir [6,13]. Bizim hastamıza da işlem uygulandığında akut faz reaktanları, steroid ile kontrol altına alınmış akut hecme nedeni ile düşük seviyede idi.

Takayasu arteritinde balon anjiyoplasti ve stent uygulamaları gibi endovasküler girişim teknikleri giderek artan başarı oranları ile yapılmaktadır. Bu tip girişimler, genellikle distal organ iskemisinin bulunduğu özellikle kısa segmenti tutan kritik damar tıkanıklıklarında daha uygundur [11].

Damar patolojisi saptanmış hastaların yara tedavi algoritminde özellikle altta yatan hastalığın tedavisi önem kazanmaktadır. Bu hastada olduğu gibi altta yatan vaskülitin medikal ve cerrahi olarak çözümlenmesi, ayrıca yara bakımında ileri teknik ve malzemelerin kullanılması ile granülasyonun sağlanması, ardından da plastik cerrahi tarafından greftleme operasyonu ile amputasyon önerilmiş bir ekstremitenin yeniden kazanılmıştır.

Sonuç olarak Takayasu arteriti, nispeten daha küçük boyutlu damarları da etkileyebilen bir vaskülit olup stenoza veya oklüzyona sebep olarak ekstremitenin distalinde iyileşmeyen yaralara sebep olabilir. Akut inflamatuvar olaylar kontrol altına alındıktan sonra, multidisipliner tedavi yaklaşımıyla böyle hastalarda katastrofik komplikasyonların gelişmesinin önüne geçilebilir.

#### Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

#### Kaynaklar

1. Isobe M. Takayasu arteritis revisited: current diagnosis and treatment. *Int J Cardiol* 2013;168(1):3-10.
2. Numano F. The story of Takayasu arteritis. *Rheumatology* 2002;41(1):103-6.
3. Jennette JC, Falk RJ, Bacon PA, Basu N, Cid MC, Ferrario F et al. 2012 revised International Chapel Hill Consensus Conference Nomenclature of Vasculitides. *Arthritis Rheum* 2013;65(1):1-11.
4. Yıldırım A, Işık A, Kılıçkan E, Gençaslan A. Takayasu arteriti'ne bağlı subklavian çalma sendromu: olgu sunumu. *CÜ Tıp Fakültesi Dergisi* 2006;28:65-8.
5. Kerr GS, Hallahan CW, Giordano J, Leavitt RY, Fauci AS, Rottem M et al. Takayasu arteritis. *Ann Intern Med* 1994;120(11):919-29.
6. Brunner J, Feldman BM, Tyrrell PN, Kuemmerle-Deschner JB, Zimmerhackl LB, Gassner I et al. Takayasu arteritis in children and adolescents. *Rheumatology* 2010;49(10):1806-14.
7. Bicakcigil M, Aksu K, Kamali S, Ozbalkan Z, Ates A, Karadag O et al. Takayasu's arteritis in Turkey-clinical and angiographic features of 248 patients. *Clin Exp Rheumatol* 2009;27(Suppl 52):S59-64.
8. Dinç T, Düzgün AP, Bekmez Ş, Coşkun F. Treatment outcomes in the management of lower extremity venous stasis ulcers. *Gaziantep Med J* 2014;20(2):126-9.
9. Maksimowicz-McKinnon K, Clark TM, Hoffman GS. Limitations of therapy and a guarded prognosis in an American cohort of Takayasu arteritis patients. *Arthritis Rheum* 2007;56(3):1000-9.
10. Hoffman GS. Treatment of resistant Takayasu's arteritis. *Rheum Dis Clin North Am* 1995;21(1):73-80.
11. Bali HK, Jam S, Jain A, Sharma BK. Stent supported percutaneous transluminal angioplasty in Takayasu's arteritis. *Int J Cardiol* 1998;66(Suppl 1):S213-7.
12. Min PK, Park S, Jung JH, Ko YG, Choi D, Jang Y et al. Endovascular therapy combined with immunosuppressive treatment for occlusive arterial disease in patients with Takayasu's arteritis. *J Endovasc Ther* 2005;12(1):28-34.
13. Sivakumar MR, Misra RN, Bacon PA. The Indian perspective of Takayasu arteritis and development of a disease extent index (DEI.Tak) to assess Takayasu arteritis. *Rheumatology* 2005; 44:6-7.

#### How to cite this article:

Dinç T, Kayıroğlu SI, Düzgün AP, Gedik HS, Coşkun F. Multidisciplinary Treatment Modality of a Patient who has Chronic Wound Related to Takayasu Arteritis. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 454-6.



## Poorly Controlled Lower HbA1c in Diabetic Patients Due to Haemolytic Anemia

### Kötü Kontrollü Diyabetik Bir Hastada Hemolitik Anemiye Bağlı Düşük HbA1c Değeri

Hemolitik Anemi HbA1c / Hemolytic Anemia HbA1c

Bünyamin Aydın<sup>1</sup>, Oğuzhan Aksu<sup>1</sup>, Burçin Özkart<sup>2</sup>, Banu Kale Köröglü<sup>1</sup>, Mehmet Numan Tamer<sup>1</sup>  
<sup>1</sup>İç Hastalıkları ABD, Endokrinoloji ve Metabolizma BD, <sup>2</sup>İç Hastalıkları ABD, Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi, Isparta, Türkiye

#### Özet

Diyabetik hastaların glisemik durumlarının takibinde en yaygın kullanılan test glikozile hemoglobin (HbA1c) ölçümüdür. Diyabetik hastalarda hedef HbA1c değerine ulaşmak mikrovasküler ve makrovasküler komplikasyonların önlenmesinde önemli olduğu için, HbA1c ölçümünde hatalı sonuçlara neden olan durumlar göz önünde bulundurulmalıdır. Bu yazıda tip 1 diyabetes mellitus tanısı olan, hiperglisemilerinin olmasına rağmen düşük HbA1c ölçülen bir olgu tartışılmıştır.

#### Anahtar Kelimeler

Diyabetes Mellitus; Glikolize Hemoglobin; Hemolitik Anemi

#### Abstract

In monitoring the glycemic status of diabetic patients with the most commonly used test glycosylated hemoglobin (HbA1c) measurement. Conditions that can cause incorrect results in the prevention of HbA1c in diabetic patients with microvascular and macrovascular complications should be considered. In this paper, the diagnosis of type 1 diabetes mellitus, although a measure of hyperglycemia, low HbA1c measured phenomenon is discussed.

#### Keywords

Diabetes Mellitus; Glycosylated Hemoglobin; Hemolytic anemia

DOI: 10.4328/JCAM.3312

Received: 12.02.2015 Accepted: 19.02.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 457-9

Corresponding Author: Bünyamin Aydın, Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi, Endokrinoloji ve Metabolizma Hastalıkları, 3200, Isparta, Türkiye.

T.: +90 2462119221 GSM: +905056790625 E-Mail: aydinbunyamin@yahoo.com

## Giriş

Diyabetes Mellitus (DM), tüm dünyadaki en önemli sağlık problemlerinden birisidir. Diyabetik hastalardaki mortalite ve morbiditenin çoğundan uzun dönem içerisinde gelişen mikrovasküler ve makrovasküler komplikasyonlar sorumludur. Bu komplikasyonların gelişmesinin ve ilerlemesinin önlenmesi de glisemik kontrol ile ilişkilidir [1]. HbA1c testi DM tanısı ve takibinde kullanılmaktadır. HbA1c; geçmiş 2-3 aylık dönemdeki ortalama glukoz değerini yansıtır ve diyabet komplikasyonlarının gelişme riskinin bir göstergesidir. Demir, vitamin B12 ve folat eksikliğine bağlı anemilerde ve anormal hemoglobopatilerde (HbF ve HbS gibi) hatalı yüksek HbA1c seviyeleri olabilirken, hemolitik anemilerde ve Demir, vitamin B12 ve folat eksikliğine bağlı anemilerin tedavisinde yanlış düşük HbA1c seviyeleri görülebilir [2]. Glukoz 6 Fosfat Dehidrogenaz (G6PD) eksikliği sık görülen eritrosit enzim eksikliğidir ve X'e bağlı resesif kalıtım gösterir. Bununla birlikte bu hastalık hem erkeklerde hemde kadınlarda görülebilmektedir. G6PD eksikliği prevalansı Afrika ve Orta Doğu'nun bazı bölgelerinde %15-25, Kuzey Amerika ve Avrupa'da %3 arasında değişmektedir. G6PD eksikliği erkeklerde (%6.6), kadınlara göre (%1.9) daha sık görülmektedir. G6PD enzim eksikliğinin Türkiye'de görülme oranı coğrafi bölgelere ve etnik gruplara göre farklılık göstermekte olup %0,25-18 oranında bildirilmekte ve en sık Çukurova bölgesinde görülmektedir [3]. Bu yazıda tip 1 DM tanısı almış fakat kan glukozunun yüksek seyretmesine rağmen, HbA1c düzeyi düşük olarak saptanan ve sonrasında G6PD enzim eksikliğine bağlı hemolitik anemi tanısı alan bir olgu sunulmaktadır.

## Olgu Sunumu

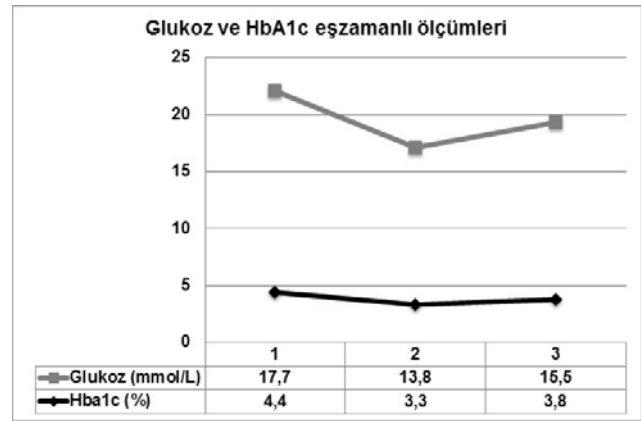
33 yaşında kadın hasta ağız kuruluğu ve sık idrara çıkma yakınmaları nedeniyle endokrinoloji polikliniğimize başvurdu. Açlık kan glukozu (AKŞ): 280 mg/dl (74-106), tokluk kan glukozu (TKŞ): 350 mg/dl, HbA1c: % 3.3 (4.6-6.1) saptanan hasta kan şekerinin düzenlenmesi amacıyla servisimize yatırıldı. Hastaya yaklaşık 4 yıl önce tip 1 DM tanısı almış olup dördü insülin tedavisi başlanmış ve halen sabah: 6 ünite, öğle: 8 ünite, akşam: 8 ünite insülin lispro ve gece 18 ünite insülin glarjin kullanmaktaydı. Hastanın ailesinde diyabet öyküsü yoktu. Kronik bir hastalığı veya sürekli kullanmış olduğu bir ilaç yoktu. Görme bozukluğu, el ya da ayaklarda uyuşma karıncalaşma gibi diyabetin komplikasyonlarına ait bir şikayet tariflemiyordu. Başvurusundaki fizik muayenede kan basıncı: 110/70 mm/Hg, nabız: 78 atım/dakika, solunum sayısı: 18 dakika, vücut sıcaklığı: 36,8°C idi, diğer sistem muayenelerinde patolojik bir bulgu saptanmadı.

Laboratuvar bulgularında, Hemoglobin (Hb): 12.7 g/dL (13.6-17.2), lökosit sayısı: 9300 mm<sup>3</sup> (5200-12400), nötrofil: % 67.5 (41-73), lenfosit: % 23.8 (19.4-44.9), monosit: % 7.3 (5.1-10.9), eozinofil: %1.2 (0.9-6), kreatinin: 0.7 mg/dl (0.6-1.3), AST: 14 U/L (0-31), ALT: 11 U/L (0-34), total bilirubin: 1.98 mg/dL (0,3-1,2), direk bilirubin: 0.45 mg/dL (0-0.2), LDH: 174 U/L (0-247) idi. İdrar analizinde protein: +1, glukoz: +1 ve keton: negatifti. Mikroalbuminüri: 60 mg/gün olarak sonuçlandı. Göz dibi muayenesinde diyabetik retinopatisi yoktu.

Kliniğimizdeki takiplerinde hastanın AKŞ' lerinin 220-280 mg/dL, TKŞ' lerinin 250-350 mg/dL aralığında seyrettiği görüldü. Hastada kan glukozunun yüksek olmasına ve mikroalbuminüri bulunmasına rağmen HbA1c düzeyi % 3.3 (4.6-6.1) idi. Hasta

özellikle son 6 aydır evde yapmış olduğu kan şekeri takiplerinin hep 200 mg/dL üzerinde olduğunu ifade ediyordu. Son bir yıl içinde bakılan iki adet HbA1c değerleri sırasıyla % 4.4 ve %3.8 idi (Grafik 1). Hastanın total bilirubini yüksekti. Hastanın anamnezinden, iki yıl önce idrar yolu enfeksiyonu nedeniyle kullanmış olduğu bir antibiyotikten sonra halsizlik başladığı, yapılan tetkiklerde anemisinin saptandığı ve hematoloji servisinde yatırılarak takip edildiği öğrenildi. Hastada G6PD enzim eksikliği olabileceği düşünüldü ve bu enzimin eksikliği kalitatif floresan spot testi ile pozitif olarak saptandı. Hastada G6PD enzim eksikliğine bağlı hemolitik anemi ve buna bağlı olarak da HbA1c seviyelerinde kan şekeri ile orantısız yalancı bir düşüklük olduğu düşünüldü.

Grafik 1.



## Tartışma

Glikolize proteinler diyabetik hastalarda kronik glisemik kontrolün göstergesi olarak kullanılır. Glikozile proteinler içerisinde en sık kullanılan ve kronik komplikasyonlarla ilişkili olduğu bilinen HbA1c'dir [4]. Eritrositler glukozu serbest geçiren olduğundan HbA1c oluşma hızı, eritrositlerin dolaşımında bulunduğu sürece ortamda var olan glukoz konsantrasyonuna ve maruz kalma süresine bağlıdır [1]. Eritrositlerin yaşam süresi yaklaşık 2-3 ay olduğuna göre HbA1c 2-3 ay boyunca maruz kalınan ortalama glukoz düzeyini gösterir [5]. Ancak bilinmelidir ki HbA1c son haftalardaki glukoz düzeyleri ile daha yakın ilişkilidir. Son 1 aydaki glukoz düzeyi HbA1c' nin % 50' sini oluştururken 60- 120. günler %25' ini, 30-60. günler de diğer % 25' ini oluşturur [6]. Hemolitik anemiler eritrositlerin normal yaşam sürelerinin eritrosit dışı sebeplere veya eritrositlerin kendilerine ait yapısal değişikliklere bağlı olarak kısalmasından kaynaklanan bir anemi grubudur. Normal koşullarda eritrositlerin yaşam süresi 120 gündür. Hemolitik anemilerde bu süre kısalmıştır. G6PD enzim eksikliği en sık görülen enzim yetersizliğidir. Eritrositlerde oksidan hasara karşı savunma, asıl olarak G6PD aktivitesine bağlıdır. G6PD glutatyonun hücre içi düzeyinin normal tutulmasında gerekli olan nikotinamid adenin dinükleotit fosfat'ın (NADPH) yapımında rol almaktadır. Glutatyon ise ilaç veya enfeksiyonlar gibi dış faktörlerin etkisiyle eritrositler içinde oluşan oksidan maddelerin yok edilmesinden sorumludur. G6PD eksikliğinde eritrositler oksitleyici bir strese uğradıklarında glutatyonu indirgenmiş durumda tutamadıkları için hemoliz gelişir. Eritrositlerde oksidatif hasara karşı gelişen savunma, mevcut enzim aktivasyonu ile orantılıdır [3]. Oksidatif stres altında G6PD eksikliği olanlarda akut hemoliz gelişir. Enfeksiyonlar, ilaçlar ve diğer

ekzojen oksidan ajanlar en fazla tetik çekmektedir. G6PD eksikliği, X'e bağlı resesif kalıtım gösterir. Bununla birlikte bu hastalık hem erkeklerde hem de kadınlarda görülebilmektedir. Erkekler tek bir X kromozomuna sahip oldukları için, ya normaldirler ya da varyant G6PD enzimine sahiptirler. Bu nedenle etkilenen erkeklerin hepsi hemolize karşı duyarlıdır. Kadınlar iki tane X kromozomuna sahip oldukları için ya heterozigot ya da homozigot varyant G6PD enzimine sahip olabilirler. Homozigot kadınlar ileri derecede etkilemişlerdir ve heterozigot erkeklerle aynı kliniğe sahiptirler. Heterozigot kadınlar genellikle klinik olarak normaldirler. Heterozigot kadınlarda G6PD enzim seviyesi normal, orta veya aşırı derecede azalmış olabilir. Bundan dolayı gerçek heterozigot kadınlar DNA analizi yapılmadığı sürece tespit edilemez [7]. Bizim hastamızda 34 yaşında bir kadın hastaydı. Muhtemelen heterozigot G6PD enzim varyantına sahipti ve klinik olarak asemptomatikti.

Hastamızda da tip 1 DM tanısı mevcuttu, evdeki kan şekeri takiplerinin yüksek olmasına, sık idrara çıkma, ağız kuruluğu gibi hiperglisemi semptomlarının olmasına rağmen ölçülen HbA1c düzeyleri düşüktü. Diyabetik hastalarda kan şekeri takiplerinin yüksek olmasına rağmen, bununla orantısız HbA1c düzeyleri ölçülebilir (Tablo 1). Bu durumda, HbA1c sonucunu etkilediği bilinen hemolitik anemiler, üremi, demir eksikliği anemisi, hemoglobinopati ve benzeri hastalıklar açısından hastalar ayrıntılı bir şekilde değerlendirilmelidir [2].

Tablo 1. HbA1c de hatalı sonuçlara yol açan nedenler

Hatalı düşük HbA1c nedenleri	Hatalı yüksek HbA1c nedenleri
1- Hemolitik anemiler	1- Demir eksikliği, vit B12 eksikliği ve folat eksikliği anemisi
2- Demir eksikliği, vit B12 eksikliği ve folat eksikliğine bağlı anemilerin tedavisinde	2- Hemoglobinopati (HbF ve HbS gibi)
3- Eritropoetin tedavisi	3- Kronik böbrek yetmezliği
4- Hemodiyaliz	
5- Ciddi kan kayıpları	

HbA1c normal yaşam süresine sahip eritrositlerde değerlidir. Eritrosit yaşam süresinin arttığı demir eksikliği, vit B12 eksikliği ve folat eksikliğine bağlı anemilerde yanlış yüksek HbA1c değerleri saptanabilir. Diğer açıdan hızlı eritrosit turnoverinin olduğu, hemolitik anemilerde ve demir eksikliği, vit B12 eksikliği ve folat eksikliğine bağlı anemilerin tedavisinde yanlış düşük HbA1c seviyeleri saptanabilir. Ölçüm metoduna bağlı olarak anormal hemoglobinopatilerde (HbF ve HbS)' de hatalı yüksek HbA1c saptanabilir. Böbrek hastalıklarında iki durum söz konusudur; 1- Üre yüksekliğine bağlı olarak karbamilenmiş hemoglobin düzeyi yükselir bu yanlış HbA1c yüksekliğine yol açabilir, 2- Eritropoetin tedavisi ve hemodiyalize bağlı olarak yanlış düşük HbA1c düzeyleri görülebilir [2]. HbA1c ölçümünün kısıtlı değer taşıdığı bu tür durumlarda ve de diyabetik gebelerde daha sık takip yapılması gerektiğinden ortalama 2 hafta önceki glisemi düzeyini gösteren fruktozamin ölçümü gibi alternatif testlere gereksinim duyulabilir.

Sonuç olarak diyabetik hastalardaki mikrovasküler ve makrovasküler komplikasyonların gelişmesinin ve ilerlemesinin önlenmesinde glisemik kontrol önemlidir. Kan şekeri ile orantısız HbA1c seviyelerinin varlığında, HbA1c' de hatalı ölçümlere neden olabilecek durumlar göz önünde bulundurulmalı ve diyabetik hastaların tedavileri bunlara göre gözden geçirilmelidir.

## Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

## Kaynaklar

1. Krishnamurti U, Steeffes MW. Glycohemoglobin: A primary predictor of the development or reversal of complications of diabetes mellitus. Clin Chem 2001;47(7):1157-65.
2. Vikoren TB, Berg JP, Berg TJ. Sources of error when using haemoglobin A1c. Tidsskr Nor Laegeforen 2014;134(4):417-21.
3. Altay C, Gumruk F. Red cell glucose-6-phosphate dehydrogenase deficiency in Turkey. Turk JHematol 2008;25(1):1-7.
4. Koga M, Saito H, Mukai M, Matsumoto S, Kasayama S. Influence of iron metabolism indices on glycated haemoglobin but not glycosylated albumin levels in premenopausal women. Acta Diabetol 2010;47(1):65-9.
5. Saudek CD, Rastogi R, Derr RL. Assessment of glycemia in diabetes mellitus: Hemoglobin A1c. J Assoc Physicians India 2005;53(4):299-304.
6. Beach KW. A theoretical model to predict the behavior of glycosylated hemoglobin levels. J Theor Biol 1979;81(3):547-61.
7. Algur N, Avraham I, Hammerman C, Kaplan M. Quantitative neonatal glucose-6-phosphate dehydrogenase screening: distribution, reference values, and classification by phenotype. J Pediatr 2012;161(2):197.

## How to cite this article:

Aydın B, Aksu O, Özkart B, Köröglü BK, Tamer MN. Poorly Controlled Lower HbA1c in Diabetic Patients Due to Hemolytic Anemia. J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 457-9.



## A Solitary Plasmocytoma Case Causing Horner Syndrome

### Horner Sendromuna Yol Açan Plazmositom Olgusu

Horner Sendromu / Horner Syndrome

Mustafa Vayvada, Mustafa Akyıl, Serkan Bayram, Mine Demir, Çağatay Tezel  
Göğüs Cerrahisi Kliniği, Süreyyapaşa Göğüs Hastalıkları ve Göğüs Cerrahisi Eğitim ve Araştırma Hastanesi, İstanbul, Türkiye

15-19 Ekim 2014, TUSAD 36. Ulusal Kongresi, İzmir'de bildiri olarak sunulmuştur

#### Özet

Soliter plazmositom; nadir görülmesine rağmen, göğüs duvarının primer malign tümörleri ile karşılaştırıldıklarında, tedavi şeması ve prognozu açısından farklılık gösterecekleri için, tanı almaları oldukça önemlidir. Olgumuz 60 yaşında erkek hasta, sol koltuk altına yayılan omuz ağrısı ve Horner sendromu bulguları ile tetkik edilirken, sol akciğer üst lob göğüs duvarı lokalizasyonunda kitle tespit edildi. Video yardımcı torakoskopi ile soliter plazmositom tanısı konuldu. Horner sendromuna yol açan primer kosta maligniteli olgu literatür eşliğinde tartışıldı.

#### Anahtar Kelimeler

Plazmositom; Horner Sendromu; Göğüs Duvarı

#### Abstract

Solitary plasmacytoma is a rare plasma cell tumour, when seen in the chest wall, it is important to diagnose since the treatment scheme and prognosis will vary, compared to primary malignant tumours of the chest wall. A 60-year-old male presented to our clinic with left shoulder pain radiating to the left axilla. Horner's syndrome symptoms were present, in further examination a chest wall mass located in the left upper lung lobe region was detected. Histopathologic diagnosis was solitary plasmocytoma via video-assisted thoracoscopy. The primary tumor of the rib malignancy causing Horner's syndrome is discussed with reference to the relevant literature.

#### Keywords

Plasmacytoma; Horner's Syndrome; Chest Wall

DOI: 10.4328/JCAM.3201

Received: 30.12.2014 Accepted: 19.02.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 460-2

Corresponding Author: Çağatay Tezel, Caferağa Mah. Gül Sok. Budak Apt. No: 1/6 Moda, Kadıköy, İstanbul, Turkey.

GSM: +905052600050 E-Mail mdcagatay@hotmail.com



## Giriş

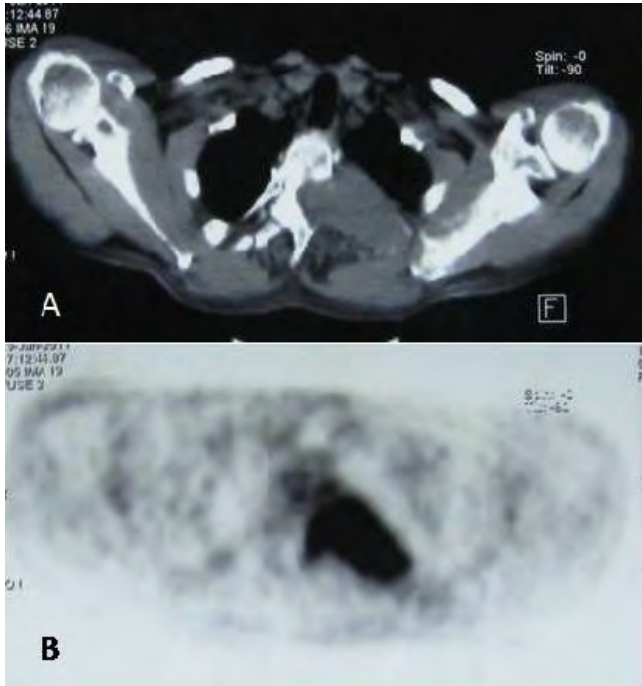
Horner sendromu olarak bilinen okülosempatik parezi, okülosempatik sinir yolunun hipotalamustan orbitaya kadar herhangi bir yerde kesintiye uğraması ile ortaya çıkan bir nörolojik sendromdur [1]. Horner sendromunun klasik bulguları pitozis, miyozis ve fasiyal anhidrozdur. Soliter plazmositom (SP) nadir görülen bir tümördür ve plazma hücre diskrazilerinin %5'inden azını, primer göğüs duvarı tümörlerinin ise %3'ünü oluşturur [2,3].

## Olgu Sunumu

Altmış yaşında erkek hasta, birkaç aydır sol koltuk altına yayılan omuz ağrısı nedeniyle başvurduğu merkezde çekilen akciğer grafisinde sol üst zonda homojen kitle görünümü saptanarak kliniğimize yönlendirildi. Hastanın başvurusunda sol gözde miyozis, pitozis bulguları vardı.

Horner sendromu bulguları mevcut olan hastaya ayrıntılı değerlendirme amacıyla toraks bilgisayarlı tomografi (BT) çekildi. Sol akciğer apikoposteriorunda birinci ve ikinci kosta ile birlikte, birinci torakal vertebrayı invaze eden ve vertebral kanalı daraltan kitle gözlemlendi. Pozitron emisyon tomografisinde (PET-BT) kitlede yüksek florodeoksiglukoz (FDG) tutulumu izlendi (SUV-max:10,8) (Resim 1). BT eşliğinde tru-cut biyopsi alındı, spesifik tanı elde edilemedi.

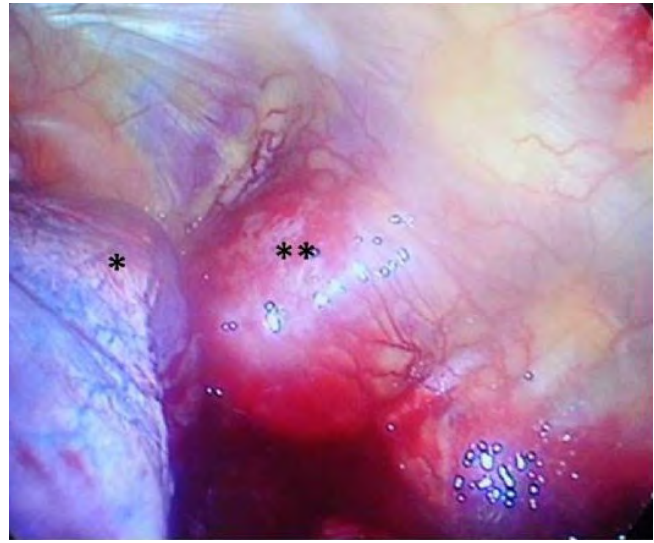
Video yardımcı torakoskopi ile yapılan eksplorasyonda kitlenin birinci kot ve birinci torakal vertebrayı invaze etmiş olduğu görüldü (Resim 2). Alınan biyopsinin histolojik incelemesi SP ile uyumlu raporlandı. Tüm vücut kemik sintigrafisi normal olan ve kemik iliği biyopsisinde patoloji saptanmayan hasta radyoterapi planlanmak üzere radyasyon onkolojisi kliniğine yönlendirildi.



Resim 1. Toraks BT'de sol akciğer üst lob göğüs duvarı lokalizasyonunda kitle (A) ve PET-BT görüntüsü (B).

## Tartışma

Horner sendromuna yol açan sempatik yolun hasarlanması en sık ikinci sıra preganglionik liflerde ortaya çıkar. Bu lifler spinal korddan çıkarak; birinci torasik sempatik ganglion ve inferior servikal gangliyonlar yoluyla superior servikal gangliyona uzanır. Bu alanda ganglionlar ile parietal plevra arasında yalnız



Resim 2. Peroperatif kitlenin görüntüsü; \*sol akciğer üst lob; \*\*1.kot kitle.

endotorasik fasya bulunur. Bu bölgedeki hasarlanmanın nedeni %90 malign bir tümörün kompresyonudur [4]. Pancoast tümörü, tüberküloz ve travma bu durumun en sık nedenidir [5]. Hastamızın başvurusunda Horner sendromu bulguları vardı ve görüntülemesi malignite düşündürmüştü.

Göğüs duvarı tümörlerinin %3'ünü SP oluşturur [3]. SP'nin 2 türü vardır. Kemik tutulumu olan osseöz tipte ağrı; yumuşak doku tutulumu olan ekstramedüller tipte ise kitle varlığı ön plandadır. Osseöz tip gelişmekte olan multipl miyelom (MM) olarak kabul edilir. Ekstramedüller tipte ise MM gelişme oranı düşüktür ve daha iyi prognozlidir [6,7]. SP daha erken yaşlarda görülürken, MM 50-70 yaş gurubunda daha sıktır. Hastalar genellikle göğüs duvarında ağrılı şişlik yakınmasıyla başvururlar [3]. Tanı aşamasında, 4 santimetreden küçük kitlelerde eksizyonel; daha büyük kitlelerde insizyonel biyopsi önerilmektedir [8]. İnce iğne aspirasyon biyopsisi (İİAB) de tanı için kullanılabilir. Agarwal ve ark. [9] 226 kemik tümöründe İİAB'yi değerlendirdikleri serilerinde, işlemi %86 duyarlı %95 özgül olarak bildirmiştir. Bizim hastamızda İİAB ve tru-cut biyopsi ile spesifik tanı elde edilemedi.

Tanı için uygun histopatolojik bulgular eşliğinde, kemik iliği biyopsisinde patoloji saptanmamalı ve radyolojik olarak başka bir yerde lezyon bulunmamalıdır [2,6]. Hastamızda ek tutulum yoktu ve kemik iliği biyopsisi normaldi.

Tedavide radyoterapi, iyi lokal kontrol sağladığından standart tedavi yöntemi olarak kabul edilir. Lokal kontrolü sağlama oranı %87-96 olarak bildirilmiştir Cerrahi eksizyon, genellikle tamamen çıkarılabilecek iyi sınırlı lezyonlarda ve patolojik kırıkların tedavisi veya önlenmesi amacıyla yapılır [7,8,10].

Uzun dönem sağkalımda MM gelişip gelişmemesi önemlidir [8,10]. Bataille ve ark.[2] SP tanılı 114 olguyu içeren serilerinde 10 yıllık takipte hastaların %85'inde nüks gelişmiştir. Olguların %58'inde MM, %12'sinde lokal nüks, %15'inde ise farklı alanda soliter lezyon ortaya çıkmıştır. Lokal nükslerin 5 santimetreden daha büyük lezyonlarda daha sık olduğu ve %82'sinde spinal tutulum varlığı bildirilmiştir [2,7].

Göğüs duvarının primer malign tümörleri arasında nadir olarak plazmositoma rastlanmaktadır. Bu olgular ek tutulum açısından ayrıntılı olarak değerlendirilmelidir. Nüks ve multiple myeloma dönüşme oranı yüksek olduğundan yakından takip edilmelidir.

### **Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı**

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

### **Kaynaklar**

1. Giles CL, Henderson JW. Horner's syndrome: analysis of 216 cases. Am J Ophthalmol 1958;46:289-96.
2. Bataille R, Sany J. Solitary myeloma: clinical and prognostic features of a review of 114 cases. Cancer 1981;48:845-51.
3. Incarbone M, Pastorino U. Surgical treatment of chest wall tumors. World J Surg 2001;25:218-30.
4. Bourque PR, Paulus EM. Chest-tube thoracostomy causing Horner's syndrome. Can J Surg 1986;29:202-3.
5. Davaganam I, Fraser CL, Miszkial K, Daniel CS, Plant GT. Adult Horner's syndrome: a combined clinical, pharmacological, and imaging algorithm. Eye 2013;27:291-8.
6. Holland J, Trenkner DA, Wasserman TH, Fineberg B. Plasmacytoma. Treatment results and conversion to myeloma. Cancer 1992;69:1513-7.
7. Tsang RW, Gospodarowicz MK, Pintilie M, Bezjak A, Wells W, Hodgson DC, et al. Solitary plasmacytoma treated with radiotherapy: impact of tumor size on outcome. Int J Radiat Oncol Biol Phys 2001;50:113-20.
8. Sabanathan S, Shah R, Mearns AJ. Surgical treatment of primary malignant chest wall tumours. Eur J Cardiothorac Surg 1997;11:1011-6.
9. Agarwal S, Agarwal T, Agarwal R, Agarwal PK, Jain UK. Fine needle aspiration of bone tumors. Cancer Detect Prev 2000;24:602-9.
10. Mendenhall WM, Mendenhall CM, Mendenhall NP. Solitary plasmacytoma of bone and soft tissues. Am J Otolaryngol 2003;24:395-9.

### **How to cite this article:**

Vayvada M, Akyıl M, Bayram S, Demir M, TezelÇ. A Solitary Plasmocytoma Case Causing Horner Syndrome. J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 460-2.



## Two Cases of Severe Combined Immunodeficiency Caused By Adenosine Deaminase Deficiency

### Adenozin Deaminaz Eksikliğinin Neden Olduğu İki Ağır Kombine İmmün Yetmezlik Olgusu

Adenozin Deaminaz Eksikliği ve Ağır Kombine İmmün Yetmezlik / Adenosine Deaminase Deficiency and Severe Combined Immunodeficiency

Türkan Patıroğlu<sup>1,2</sup>, Hatice Eke Güngör<sup>1</sup>, Himmət Haluk Akar<sup>1</sup>, Ekrem Ünal<sup>2</sup>, Selim Kurtoğlu<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Çocuk İmmünoloji Bilim Dalı, <sup>2</sup>Çocuk Hematoloji Onkoloji Bilim Dalı, <sup>3</sup>Çocuk Endokrinoloji ve Yenidoğan Bilim Dalı, Erciyes Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Kayseri, Türkiye

Bu yazı 2-6 Kasım 2013 tarihleri arasında Antalya'da yapılan 20. Ulusal Allerji ve Klinik İmmünoloji Kongresi'nde poster olarak sunulmuştur.

#### Özet

Ağır kombine immün yetmezlik (AKİY) T lenfosit, B lenfosit ve bazen doğal öldürücü (NK) hücrelerin farklı genetik defektlerle fonksiyonlarında bozukluklarla karakterize, yaşamın ilk aylarından itibaren ciddi enfeksiyonlarla kendini gösteren, primer immün yetmezlik hastalığıdır. Adenozin deaminaz (ADA) eksikliği, ADA'nın toksik metabolitlerinin neden olduğu ağır lenfopeni ve immün yetmezlikle seyreden bir AKİY çeşitidir. Profilaktik antimikrobiyal tedavi, intravenöz immunoglobulin (IVIg) ve enzim replasmanı geçici düzeltilmeler sağlayabilse de kemik iliği transplantasyonu (KİT) günümüzde tek küratif tedavi yöntemidir. Erken dönemde, hastaların ciddi enfeksiyonlar ve organ hasarı gelişmeden tanı alması ve pediatrik immünoloji merkezlerine gönderilmesi prognoza önemli ölçüde katkı sağlar. Burada yenidoğan döneminde cilt renginde koyulaşma ve ağır enfeksiyonlarla başvuran, kardeş ölümü ve aile öyküsü olan, yapılan incelemeler sonucu ADA enzim aktivitesinin yokluğu ve ADA geninde ekson 8'de homozigous Q246X (c.736C>T) nonsense mutasyon saptanan AKİY'li iki kuzen olgu, nadir görülen mutasyona ve hastalığın oluşturduğu pediatrik acil duruma dikkat çekmek amacıyla sunuldu.

#### Anahtar Kelimeler

Adenozin Deaminaz; Ağır Kombine İmmün Yetmezlik; Genetik; Mutasyon

#### Abstract

Severe Combined Immune Deficiency (SCID) is a primary immune deficiency disorder manifested with severe infections upon first months of life, which is characterized by diverse genetic defects in T and B lymphocyte functions and occasionally in NK cells. ADA deficiency is a form of SCID progressing with severe lymphopenia and immune deficiency caused by toxic metabolites of ADA. Bone marrow transplantation (BMT) is the only curative treatment although prophylactic anti-microbial therapy, intravenous immunoglobulin (IVIg) and enzyme replacement can achieve transient improvements. Early diagnosis before development of severe infections and organ injury and referral to pediatric immunology clinics will make considerable contributions to prognosis. Here, we presented 2 cousins with SCID who had positive family history with deceased sibling; presented with tanning at skin, severe neonatal infections and Q246X (c736C>T) non-sense mutation in exon 8 in ADA gene in order to emphasize this rare mutation and pediatric emergencies associated with this disorder.

#### Keywords

Adenosine Deaminase; Severe Combined Immune Deficiency; Genetics; Mutation

DOI: 10.4328/JCAM.3299

Received: 10.02.2015 Accepted: 22.02.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 463-5

Corresponding Author: Hatice Eke Güngör, Erciyes Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Fevzi Mercan Çocuk Hastanesi, Çocuk İmmünoloji Bilim Dalı, 38000, Kayseri, Türkiye. T.: +90 3522076666 F.: +903524375825 E-Mail: haticeekegungor@hotmail.com

## Giriş ve Amaç

Kombine immün yetmezlik (KİY) farklı genetik nedenlere bağlı olarak lenfositlerin gelişiminde ve fonksiyonlarında bozukluklarla karakterize pediatrik bir acildir [1]. Etkilenen çocuklar yaşamın ilk aylarından itibaren ciddi enfeksiyonlara yatkındırlar, tedavi edilmezlerse kaybedilirler [1]. KİY'in insidansı değişmekle birlikte 1/50.000-1/100.000 olarak tanımlanmaktadır. Bu hastalık defektlerin özelliğine göre yalnızca T lenfositler (T-B+NK+), T lenfosit ve natural killer (NK) hücreleri (T-B+NK-), T ve B lenfositleri (T-B-NK+) veya T ve B lenfosit yanısıra NK hücrelerini de (T-B-NK-) etkileyebilmektedir [2]. Hem hücresel hem de humoral immünitene etkilendiği immün yetersizlikler ağır kombine immün yetmezlik (AKİY) olarak tanımlanır. Adenozin deaminaz (ADA) eksikliğinde deoksi adenozin triphosphate (dATP) ve S-adenozil homosistenin gibi yükselmiş lenfotoksik metabolitlerin direkt veya indirekt yollarla lenfosit apoptozunu artırdığı gözlenir [3]. Dolaşımdaki T ve B hücrelerinin doğuştan yokluğu veya progresif azalma sözkonusudur. NK hücre gelişiminde de belirgin bozukluklar gözlenmektedir. Ayrıca serum immünglobulinlerinde (Ig) progresif azalma vardır.

ADA gen 32 kb genişliğinde, 12 ekson içeren 20. kromozom üzerinde kodlanan bir gendir [4] Şu ana kadar bu gen üzerinde 70'den fazla mutasyon bildirilmiştir [3]. Mutasyonların çoğu missense mutasyon (%63), daha az olarak da splicing mutasyon (%18), delesyon mutasyonu (%13) ve nonsense mutasyonlar (%6) gözlenir [3]. Bu makalede yenidoğan döneminde cilt renginde koyulaşma ve ağır enfeksiyon şikayetleri ile başvuran, ADA enzim aktivitesinin olmadığı ve ADA geninde ekson 8'de homozygous Q246X (c.736C>T) nonsense mutasyon saptanan AKİY'li iki kuzen olgu nadir gözlenen mutasyona ve hastalığın oluşturduğu pediatrik acil duruma dikkat çekmek amacıyla sunuldu.

## Olgu Sunumu 1

Doğduğundan beri emmeme ve huzurluk şikayeti olan 15 günlük erkek hasta, ateşinin yükselmesi ve cilt renginde koyulaşma olması üzerine başvurdu (Resim 1). AKİY nedeniyle 7 aylık iken kardeş kaybı öyküsünün olduğu öğrenildiği. Ebeveynler arasında 3. dereceden akrabalık mevcuttu. Fizik bakısında; ağırlık: 3000gr (50p), boy: 50cm (25-50p), baş çevresi: 35cm (25-50p), ateş: 39 °C (aksiller) idi. Tüm vücudunda yaygın hiperpigmentasyon ve dinlemekle akciğerlerinde krepitan raller duyuldu. Laboratuvar incelemesinde; lökosit/lenfosit sayısı: 2300/640 mm<sup>3</sup> idi ve akciğer grafisinde timus gölgesi izlenmedi. Kardeşinde immün yetmezlik nedeniyle ölüm öyküsünün olması, Ig, T ve B lenfosit oranlarında düşüklük bulunması nedeni ile AKİY düşünüldü (Tablo 1). Hiperpigmentasyonuna yönelik bakılan kortizol, ACTH ve 17-OH progesteron değerleri normal sınırlarda idi. Enfeksiyonu uygun antibiyotiklerle tedavi edildi, intravenöz immünglobulin (IVIG) verildi. ADA enzim aktivitesi çalışılan hastada ADA düzeyi 0 nmol/h/mg (26 ± 10) olarak ölçüldü ve enzim replasman tedavisine başlandı. Genetik analizinde ADA geninde ekson 8'de homozygous Q246X (c.736C>T) nonsense mutasyon saptandı. İzleminde haploidentik kemik iliği nakli (KİT) yapılan olgu KİT yapıldıktan sonraki 6. ayda sepsis ve solunum yetmezliği nedeniyle kaybedildi.



Resim 1. Olgunun tüm vücudunda gözlenen pigmentasyon artışı.

Tablo 1. Olguların Laboratuvar Özellikleri

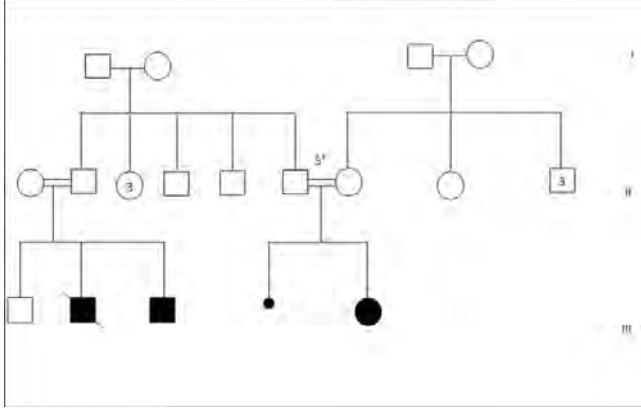
	Olgu 1	Olgu 2
IgA (mg/dL)	<6.6 (15-52)	<6.6 (15-52)
IgG (mg/dL)	310 (470-970)	537 (470-970)
IgM (mg/dL)	16.9 (41-139)	16.9 (41-139)
IgE (iu/mL)	17.3 (0-100)	17.2 (0-100)
CD45 (%)	86.9 (88-100)	77.4 (88-100)
CD3 (%)	2 (60-85)	8,1 (60-85)
CD4 (%)	1.2 (29-59)	7,9 (29-59)
CD8 (%)	0.6 (19-48)	0 (19-48)
CD19 (%)	0.7 (11-16)	9,7 (11-16)
NK (%)	29.6 (5-20)	23,7 (5-20)
ADA düzeyi (nmol/h/mg)	0 (26 ± 10)	0 (26 ± 10)
dAXP düzeyi (%)	68.5 (<1)	
Mutasyon	Ekson 8.c.736C>T (Q246X) nonsense	Ekson 8.c.736C>T (Q246X) nonsense

Ig: immünglobulin, ADA: adenozin deaminaz, dAXP: deoksiadenozin,

## Olgu Sunumu 2

18 günlük kız hasta, ateş ve cilt renginde koyulaşma nedeni ile başvurdu. Öyküsünden 52 günlük inutero ex kardeş ölüm öyküsü ve kuzeninde ADA eksikliği olduğu öğrenildi (Resim 2). Ebeveynler arasında 3. dereceden akrabalık vardı. Fizik bakısında; ağırlık: 2800gr (10-25p), boy: 48cm (25-50p), baş çevresi: 34cm (25-50p), TA: 80/65 mmHg, ateş: 38.5 °C (aksiller) idi. Solunum sayısı 54/dk, belirgin solunum sıkıntısı ve dinlemekle her iki akciğerde yaygın ince raller duyuldu. Laboratuvar incelemesinde; Hb: 15.2 g/dl, lökosit/lenfosit sayısı: 1600/780 mm<sup>3</sup>, trombosit sayısı: 185000 mm<sup>3</sup> olup hiperpigmentasyonuna yönelik bakılan kortizol, ACTH ve 17-OH progesteron değerleri normal sınırlarda idi. PA akciğer grafisinde timus gölgesi izlenmedi (Re-

sim 3). Ig, T ve B lenfosit oranlarında düşüklük bulunması nedeni ile AKİY düşünüldü (Tablo 1). Aile öyküsü olduğu için ADA enzim aktivitesi çalışılan hastada ADA aktivitesi olmadığı için enzim replasmanına başlandı. ADA geninde exon 8'de homozygous Q246X (c.736C>T) nonsense mutasyon tespit edildi. Enfeksiyonuna yönelik uygun antibiyotik tedavisi ve IVIG verildi. KİT yapılması planlandı. Ancak aspirasyon pnömonisi ve solunum yetmezliği nedeniyle hasta kaybedildi.



Resim 2. Olguların soyağacı.



Resim 3. Akciğer parankimi normal ancak seçilemeyen timus gölgesi.

## Tartışma

ADA eksikliği otozomal resesif geçişlidir ve tüm KİY'lerin %10-20'sini oluşturur [3]. Genellikle hastalara 6 ay civarında tanı konur. Enzim replasmanı ve KİT yapılan hastalarda yaşam süresi uzayabilir. Olguların yaklaşık %20'sinde rezidü immün fonksiyonlar nedeniyle hastalığın başlangıcı geç çocuklukta ve erişkin yaşlarda gözlenerek ılımlı fenotipe yol açmaktadır. Ayrıca bazı sağlıklı çocuklarda ve erişkinlerde taramalar sırasında kısmi ADA eksikliği tespit edilmiştir. Geniş klinik ve mutasyon spektrumu nedeniyle başlangıç yaşı, semptomların ağırlığı ve prognozu değişken olan olgular bildirilmiştir [5]. Bizim olgularımız ADA enzim aktivitesinin tamamen yokluğu ve AKİY nedeniyle yaşamlarının ikinci haftasında tanı almıştır.

Humoral ve hücrel immunitenin ağır bozukluğundan ileri gelen bu hastalıkta kronik diyare, inatçı oral kandidiasis, pnömoni, kronik otitis media, deri enfeksiyonları, sepsis gibi etkenleri bakteri, virüs, mantar ve parazit olabilen enfeksiyonlar görülür. Ağır ve tekrarlayan fırsatçı enfeksiyonların yanısıra, geliş-

me geriliği, nörolojik bozukluklar, iştme anormallikleri, akciğer ve karaciğerde anormal bulgular ve iskelet displazileri gözlenmektedir [3]. Bizim olgularımızda enfeksiyon bulgularının yanı sıra ciltte hiperpigmentasyon gözlemlendi. Literatür incelendiğinde ADA eksikliği ve hiperpigmentasyonun birlikte görüldüğü başka olguya rastlanmadı.

ADA eksikliği olan olgularda T ve B lenfosit fonksiyonlarında ve NK hücre sayı ve fonksiyonlarında bozukluklar gösterilmiştir. Serum Ig düzeyleri düşüktür ancak anneden geçen IgG nedeniyle ikinci olgumuzda olduğu gibi ilk 4-6 ay serumda IgG düzeyleri normal olabilir. Ayrıca her iki olgumuzda da henüz NK hücre sayılarında azalma gözlenmemiştir.

ADA gen üzerinde 70'den fazla mutasyon bildirilmiştir, mutasyona uğramış ADA allellerinin yaklaşık yarısı kişiye özel, heteroalleliktir ve tek bir ailede gözlenir [6]. Mutasyon için homozigotluk akraba evliliği ya da ortak bir coğrafi köken ile ilişkilidir. Bir çalışmada 50 hastada bakılan mutasyonlarda en yaygın olanları R211H (%11) and G216R (%13), daha nadir olanlar ise her biri %5-7 sıklığında L107P, R156H, A329V ve 955del5 mutasyonlarıdır [6]. Ebeveynlerinde akraba evliliği öyküsü olan her iki olgumuzda da nadir gözlenen homozygous Q246X (c.736C>T) nonsense mutasyon tespit edildi.

Hastalığın tedavisinde polietilenglikol (PEG)-ADA enzim yerine koyma, human lökosit antijen (HLA) uyumlu KİT ve ADA cDNA gen tedavisi esastır [7]. Her iki olguya da PEG-ADA başlandı, birinci olguya KİT yapıldı ancak KİT sonrası 2. Ayda, ikinci olgu ise KİT yapılamadan kaybedildi.

AKİY'lerin erken tanınması enfeksiyonların azaltılması, komplikasyonların önlenmesi, yaşam kalitesinin artırılması, genetik danışmanlık ve yaşamın devamı için gereklidir [8]. Burada yenidoğan döneminde ağır enfeksiyon ve cilt renginde koyulaşma ile başvuran, kardeş ölümü ve aile öyküsü olan, yapılan incelemeler sonucu ADA eksikliği ve ADA geninde nadir görülen bir mutasyon saptanan AKİY'li iki kuzen olgu bu hastalığın oluşturduğu pediatrik acil duruma dikkat çekmek amacıyla sunuldu.

## Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

## Kaynaklar

1. Gaspar HB, Hammarström L, Mahlaoui N, Borte M, Borte S. The case for mandatory newborn screening for severe combined immunodeficiency (SCID). *J Clin Immunol* 2014;34(4):393-7.
2. Turul T, Sanal Ö. İmmün yetersizlikler. *Türkiye Klinikleri J Pediatr Sci* 2005;1(5):27-31.
3. Hershfield MS. Genotype is an important determinant of phenotype in adenosine deaminase deficiency. *Curr Opin Immunol* 2003;15:571-7.
4. Valerio D, Duyvesteyn MG, Dekker BM, Weeda G, Berkvens TM, van der Voorn L et al. Adenosine deaminase: characterization and expression of a gene with a remarkable promoter. *EMBO J* 1985;4(2):437-43.
5. Giblett ER, Anderson JE, Cohen F, Pollara B, Meuwissen HJ. Adenosine deaminase deficiency in two patients with severely impaired cellular immunity. *Lancet* 1972;2(7786):1067-9.
6. Hershfield MS, Mitchell BS. Immunodeficiency diseases caused by adenosine deaminase deficiency and purine nucleoside phosphorylase deficiency. In: Valle D, ed. *The Metabolic and Molecular Bases of Inherited Disease*. 8th ed. New York, NY: McGraw-Hill; 2001:2585-625.
7. Arredondo-Vega FX, Santisteban I, Daniels S, Toutain S, Hershfield MS. Adenosine deaminase deficiency: genotype-phenotype correlations based on expressed activity of 29 mutant alleles. *Am J Hum Genet* 1998;63(4):1049-59.
8. Gaspar HB, Qasim W, Davies EG, Rao K, Amrolia PJ, Veys P. How I treat severe combined immunodeficiency. *Blood* 2013;122(23):3749-58.

## How to cite this article:

Patroğlu T, Güngör HE, Akar HH, Ünal E, Kurtoğlu S. Two Cases of Severe Combined Immunodeficiency Caused By Adenosine Deaminase Deficiency. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 463-5.



## Rhinocerebral Mucormycosis: A Rare Diagnose for Emergency Room; Case Report

### Rinoserebral Mukormikoz: Acil Serviste Nadir Teşhis; Olgu Sunumu

Rhinocerebral Mucormycosis / Rinoserebral Mukormikoz

Hamit Hakan Armağan<sup>1</sup>, Önder Tomruk<sup>1</sup>, Menderes Kıldiran<sup>1</sup>, Giray Aynalı<sup>2</sup>, Ayşe Aynalı<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Acil Tıp ABD, <sup>2</sup>Kulak Burun Boğaz Hastalıkları ABD, <sup>3</sup>Tıbbi Mikrobiyoloji ABD, Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi, Isparta, Türkiye

#### Özet

Rinoserebral mukormikoz, mortalitesi yüksek, nadir görülen invazif bir fungal enfeksiyondür. Sıklıkla diyabetik ketoasidoz, yüksek doz kemoterapi gerektiren hematolojik malignite, AIDS, organ transplantasyonu ve hemodiyalizle ilişkili olarak ortaya çıkar. Baş ağrısı, iştahsızlık, yanakta ağrı, şişlik, uyuşma şika-yetleriyle başvuran 64 yaşında diyabetik hastaya, rinoserebral mukormikoz tanısı konulmuştur. Bu olguda son derece mortal seyredabilen rinoserebral mukormikoz olgularına dikkat çekmek amaçlandı.

#### Anahtar Kelimeler

Diabetes Mellitus; Rinoserebral Mukormikoz; Prognoz

#### Abstract

Rhinocerebral mucormycosis is a rare, invasive fungal infection with high mortality. It is frequently associated with diabetic keto-acidosis, hematologic malignancies receiving high-dose chemotherapy, HIV infection, organ transplantation and hemodialysis. An 64 year-old diabetic female presenting with headache, loss of appetite, pain, swelling, numbness in cheek was diagnosed as rhinocerebral mucormycosis. In this case, can be extremely mortal was to draw attention to cases of rhinocerebral mucormycosis.

#### Keywords

Diabetes Mellitus; Rhinocerebral Mucormycosis; Prognosis

DOI: 10.4328/JCAM.3257

Received: 22.01.2015 Accepted: 23.02.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 466-8

Corresponding Author: Hamit Hakan Armağan, Acil Tıp ABD, Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi, Isparta, Türkiye.

T.: +90 2462119213 GSM: +905056684985 E-Mail: hhakan2002@yahoo.com, armaganhamit@sdu.edu.tr

## Giriş

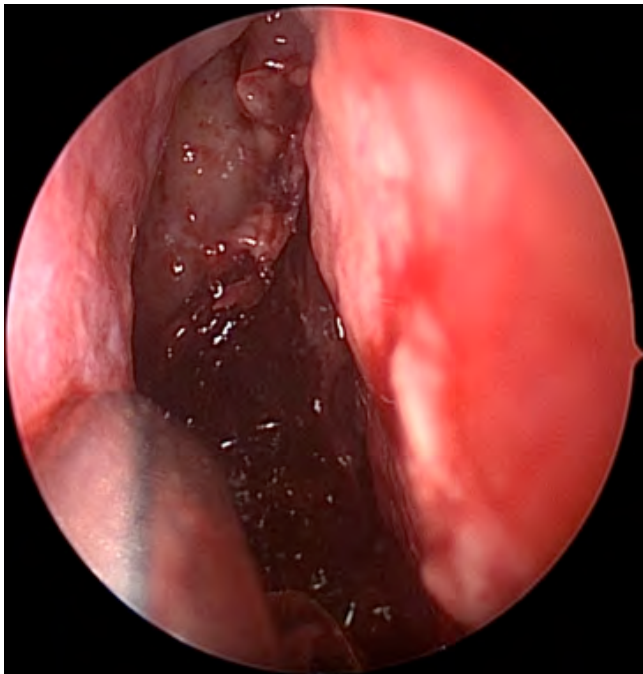
Mukormikoz Mucorales takımı küf mantarlarından *Mucor*, *Rhizopus* veya *Absidia*'nın oluşturduğu organ tutulumu ile karakterize invaziv fungal bir enfeksiyondur. İnsan nazal ve boğaz florasında, toprakta, çürümüş ekme ve meyvelerde saprofit olarak bulunur. Çevreden inhalasyon yolu ile alınan sporlar, hücrel ve humoral savunma mekanizmaları hastalık veya immünsüpresan tedavi nedeniyle baskılanmış kişilerde burun veya paranazal sinüslerde yerleşerek enfeksiyona sebep olurlar [1-2].

Özellikle kontrol altına alınamamış diyabet, hematolojik maligniteler, uzun süreli immünosüpresif veya kortikosteroid tedavi, başlıca predispozan faktörlerdir. Akciğer, deri, gastrointestinal sistem, santral sinir sistemi tutulumları ve nadiren dissemine formda görülebilmektedir fakat en sık rinoserebral tutulum olarak karşımıza çıkmaktadır [3].

Diabetik hastalarda en sık rinoserebral mukormikoz görülürken hematolojik maligniteli ya da kemik iliği nakli yapılan nötropenik hastalarda rinoserebral veya pulmoner; malnutrisyonlu hastalarda ise gastrointestinal form daha sık görülebilmektedir [1]. Nadir görülen ve tanısı güçlükle konulmasına rağmen erken tanı ile prognozu iyi seyreden bir olgu ile erken tanı, ayırıcı tanı ve tedavinin prognoz açısından önemi vurgulanmaya çalışıldı.

## Olgu Sunumu

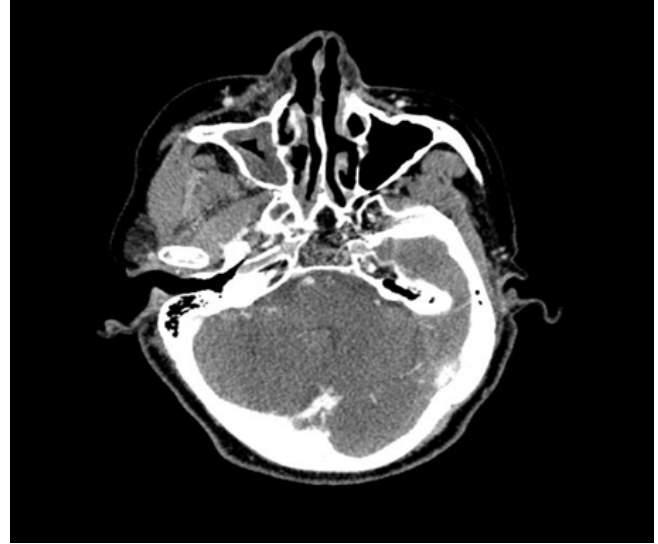
64 yaşında bayan hasta, baş ağrısı, iştahsızlık, sağ yanakta ağrı, şişlik ve uyuşma yakınmalarıyla başvurduğu diğer bir hastanede fasial paralizi tanısıyla yatışı yapılmış ancak hastanın yatışının 2. gününde şikayetlerinde artma olması üzerine hastanemize sevk edildi. Hastanın özgeçmişinde; hipertansiyonu, tip 2 diyabeti ve tiroidektomi operasyonu olduğu öğrenildi. Fizik muayenesinde vücut sıcaklığı 36,7°C, nabız 98/dakika TA 180/100 mmHg idi. Fizik muayenesinde sağ yanak ve molar dişte hassasiyet burun sağ nazal kavitede kenarında hemorajik, ekimotik, tabanı nekrotik lezyonlar, nazal pasajda sağ yarısında siyah krutlanma, sağ periorbital ödeme bağlı görme problemleri saptanması dışında özellik yoktu.(Resim 1)



Resim 1. Orta konkayı tutmuş mukormikoz endoskopik görüntüsü

Laboratuvar incelemelerinde; lökosit 23600/mm<sup>3</sup>, CRP 141 mg/L, glukoz 291 mg/dl, sodyum 130 mmol/l, olması dışında özellik saptanmadı.

Apseye yönelik istenen yüzeysel doku ultrasonografisi normaldi. Hastanın tomografisinde; sfenoid sinüs, frontal sinüs, etmoid hava hücreleri sağ yarısında ve sağ maxiller sinüste havalanma kaybına neden olan yumuşak doku dansiteleri izlendi. (Resim 2)



Resim 2. Hastanın tomografik görüntüsü

Kranial manyetik rezonans görüntülemesinde (MRG) de; perisupraventriküler düzeyde beyaz cevherde iskemik-gliotik odak ile uyumlu sinyal değişikliği izlendi. Sağ maxiller sinüste, sfenoid sinüs sağ yarıda ve etmoid hava hücrelerinde mukozal kalınlaşma mevcuttu. Hasta bu bulgularla mukormikoz öntanısıyla enfeksiyon hastalıklarına konsülte edilerek yatışı yapıldı. Klinik olarak mukormikoz düşünülerek hastaneye yatırılan hasta ya ampirik piperasilin tazobaktam ve lipozomal amfoterisin B intravenöz (AmBisome® GILEAD, Cambridge, England 5 mg/kg/gün) başlandı. Yattığı serviste Kulak Burun Boğaz(KBB) ve Nöroloji tarafından konsülte edilen hastanın burun kültüründe *S.aures* kolonizasyonu görüldü.

Hastaya KBB tarafından endoskopik sinus cerrahisi ile sağ etmoidektomi, sağ maxiller ve orta nekrotik dokuların debrütmanı yapıldı. Postoperatif dönemde periorbital ödem hızla geriledi ve genel durumu düzeldi. Lokal iyilik hali 5. hafta kabul edilirken ambisome 6. haftaya tamamlandı. Alınan biyopsi materyalinden *rhizopus* spp üredi. Alınan dokuların histopatolojik incelemesinde nekrotizan inflamasyon ve mantar yapıları(hifa ve sporları) gözlenmesi ile mukormikozis tanısı kondu. Antifungal tedavinin 14. gününde kontrol yara yeri kültüründe küf ve bakteri üremedi.

## Tartışma

Mukormikozun diabetik hastalarda daha sık görülmesinin nedeni olarak bu hastalarda transferrinin demir bağlama kapasitesinin azalmasına ve mantarların serumdaki demiri daha kolay kullanarak daha çabuk üreyebilmesi olarak düşünülmektedir. Ayrıca ketoasidozda mantar üremesi hızlanmakta, mantar çoğaldıkça daha fazla vasküler invazyon yaparak iskemiyi ve dolayısıyla asidozu artırmaktadır [4].

Nithyanontan ve ark. tarafından 1992-2000 yılları arasında 34 hasta, Khor ve ark. tarafından 1988-2003 yılları arasında 21

hastada mukormikoz tanısı bildirilmiştir. Herhangi bir yaşta ortaya çıkabilir ancak 2 farklı literatürde ortalama yaş olarak 34 ve 54 olarak bulunmuştur [5-6]. Bizim olgumuzda 64 yaşındaydı. Hastamızda literatürle farklı yaş grubunda görülmesinin sebebi olarak somut bir neden tespit edilememiştir.

Rinoserebral mukormikoz, damak veya sinüslerde nekrozla başlamakta sonrasında orbita ve beyin dokularına ulaşmaktadır. Yayılım, nekroza bağlı olarak doğrudan veya çevre damarlardan emboliyle gerçekleşmektedir. Hastalar genellikle yüz ve baş ağrısı, ateş, yumuşak dokularda selülitte bağlı şişliklerle başvurmakta ve nekroza bağlı olarak damak ve burunda siyah renkli krutlar görülmektedir [2]. Hastamız iştahsızlık, baş ağrısı, yüz yarısında uyuşma ve nazal kavitede krutlanmış siyah lezyon yakınmasıyla başvurmuş, bu bulgularla mukormikoz ön tanısı almıştır. Kesin tanı için şüpheli nazal ve/veya oral mukozal lezyonlardan derin biyopsi örneği alınmalıdır. Taze doku örnekleri histopatolojik ve mikrobiyolojik yöntemlerle incelemesi sonucu mukormikoz tanısı konulmaktadır [7]. Bizim olgumuzda kesin tanı biyopsi örneğinin histopatolojik incelemesi sonucu konulmuştur.

Enfeksiyöz ajanın hifleri, arterler, lenfatikler ve sinirlere doğru büyüyerek genişlemektedir. Fungusun özellikle arterlere yüksek afinitesi vardır ve oluşturduğu fibrin reaksiyonu ile tromboza yol açarak hedef dokuda iskemi ve infarkta sebep olmaktadır. Bu infarkt nedeniyle siyah, nekrotik skarlar görülmektedir. Siyah, nekrotik, oral veya fasiyal skarlar sadece %19 hastada erken dönemde görülürken, ileri evrelerde görülme oranı %38'dir [6]. Bizim olgumuzda da siyah skar dokusu saptandı ve biyopsi ile kesin tanı konuldu. Vasküler oklüzyon ayrıca asidik ortam oluşturarak, fungusun büyümesi için uygun ve IV antifungal ajanlara karşı koruyucu olan bir alan ortaya çıkar [6,8]. Bu durumda olgumuzda olduğu gibi sadece iv antifungal ajan kullanımı yeterli olmamakta, cerrahi debridman önem kazanmaktadır.

Rinoserebral mukormikoz tedavisi, infekte dokuların radikal cerrahi debridmanı ve sistemik olarak yüksek doz amfoterisin B uygulanmasını içermektedir. Tedavi süresinin klinik yanıtı göre ayarlanması gerekmektedir ve bu yanıt en az 6-10 haftada alınmaktadır [3]. Bizim olgumuzda da lokal iyilik hali 5. hafta kabul edilirken ambisome 6. haftaya tamamlanmıştır.

Erken tanı yaşam şansını anlamlı olarak arttırdığı görülmüştür. Altı gün içinde tedaviye başlanan hastalar arasında sağkalım oranı %76-81 iken, 12 günden fazla geciken tedavide sağkalım oranı %36-42'ye gerilemektedir [5]. Bizim olgumuz da cerrahi debridman ve amfoterisin B tedavisiyle tamamen iyileşmiştir. Erken tanı ve antifungal tedaviyle birlikte cerrahi debridman, mortaliteyi azaltmada önemli rol oynamaktadır [9].

### Sonuç

Mukormikoz nadir ancak sıklıkla ölümcül seyreden, invaziv bir fungal enfeksiyondür. Erken tanı ve yerinde tedavi ile sonuçlanabilen bu hastalık önlenemez veya yaşam süresi uzatılabilir. Bu yüzden risk grupları dikkatle izlenmelidir.

### Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

### Kaynaklar

1. Mandell GL, Bennett JE, Dolin R, editors. Principles and Practice of Infectious Disease, 5th ed. NewYork: Churchill Livingstone; 2000.p.2685-95.
2. Shi BY, Lan L, Guo H, Tan YF. Concomitant diabetic ketoacidosis and rhinocerebral mucormycosis: report of a case. Chin Med J (Engl) 2004;117(7):1113-5.
3. Topçu AW, Söyletir G, Doğanay M, editörler. İnfeksiyon Hastalıkları ve Mikrobiyolojisi, 2. baskı. İstanbul: Nobel Tıp Kitapevleri; 2002.p.1829-33.
4. Coşkun H, Heper Y, Hızalan İ, Erişen L, Basut O, Akalın H. Rino-serebral mukormikozis: Üç olgu sunumu. Türk Otolarengoloji Arşivi 2004;42(1):41-50.
5. Hendrickson RG, Olshaker J, Duckett O. Rhinocerebral mucormycosis: a case of a rare, but deadly disease. J Emerg Med 1999;17(4):641-5.
6. Moll GW, Raila FA, Liu GC, Conerly AW Sr. Rhinocerebral mucormycosis in IDDM. Sequential magnetic resonance imaging of long-term survival with intensive therapy. Diabetes Care 1994;17:1348-53.
7. Feeley MA, Righi PD, Davis TE, Greist A. Mucormycosis of the paranasal sinuses and septum. Otolaryngol Head Neck Surg 1999;120(5):750.
8. Ferry AP, Abedi S. Diagnosis and management of rhino-orbitocerebral mucormycosis (Phycomycosis). A report of 16 personally observed cases. Ophthalmology 1993;90:1096-104.
9. Jin-Geun K, Hye Jeong P, Jung Hyun P, Jiwoong B, Hyung Jun K, In-Ho C et al. Importance of immediate surgical intervention and antifungal treatment for rhinocerebral mucormycosis. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg 2013;39:246-250.

### How to cite this article

Armağan HH, Tomruk Ö, Kıldiran M, Aynalı G, Aynalı A. Rhinocerebral Mucormycosis: A Rare Diagnose for Emergency Room; Case Report. J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 466-8.





## Testicular Epidermoid Cyst and Testis Sparing Surgery

### Testiste Epidermoid Kist ve Testis Koruyucu Cerrahi

Barut ve ark Epidermoid Kist / Barut et al Epidermoid Cyst

Osman Barut<sup>1</sup>, Ahmet Karakeci<sup>2</sup>, Tunc Ozan<sup>2</sup>, Fatih Firdolas<sup>2</sup>  
<sup>1</sup>Urology, Dr.Ersin Arslan Government Hospital, Gaziantep,  
<sup>2</sup>Urology, Faculty of Medicine, Firat University, Elazig, Turkey

#### Özet

Epidermoid kistler, testiste oldukça nadir görülen ve patogenezi hala tartışmalı olan benign lezyonlardır. Olgu, 39 yaşında testiküler epidermoid kisti bulunan ve testis koruyucu cerrahi uygulanan hastadır. Patogenezi, tanısal kriterleri, ayırıcı tanısı ve tedavi alternatifleri tartışılmıştır.

#### Anahtar Kelimeler

Testis; Epidermoid Kist; Tedavi

#### Abstract

Epidermoid cysts are rare benign testicular lesions and pathogenesis are still controversial. In this case we presented a 39-year-old patient with testicular epidermoid cyst which testis-sparing surgery was performed. Pathogenesis, diagnostic criteria, differential diagnosis and treatment options of the disease are discussed.

#### Keywords

Testicular Tumors; Epidermoid Cysts; Testis; Sparing Surgery

DOI: 10.4328/JCAM.3214

Received: 06.01.2015 Accepted: 25.02.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 469-71

Corresponding Author: Ahmet Karakeci, Uroloji Kliniği, Firat Üniversitesi Hastanesi, 23119, Elazig, Turkey.

T.: +90 4242333555 F.: +90 4242388096 E-Mail: drakarakeci@gmail.com

## Giriş

Testiste görülen epidermoid kistler tüm testis tümörlerinin yaklaşık % 1'ini oluşturmaktadır. Testisteki epidermoid kistler, nadir görülen benign tümörlerdir [1]. Histogenetik olarak epidermoid kistlerin orjini net olarak bilinmemektedir. Bununla ilgili 2 farklı görüş vardır. Birçok patolog epidermoid kistleri malign özelliği olmayan monodermal teratom olarak kabul etmektedir. Bir diğer görüş ise; testisteki epidermoid kistlerin rete testisin veya seminifer tubulusların skuamöz epitelyuma metaplazisinden kaynaklandığını ileri sürmektedir. Epidermoid kistler genellikle 2-4. dekatlar arasında testiste ortalama 2 cm büyüklüğünde ağrısız palpabl kitle olarak belirti verirler [2].

Bu yazıda testis koruyucu cerrahi yapılan 39 yaşındaki erkek hastada saptanan epidermoid kist olgusu sunulmuştur.

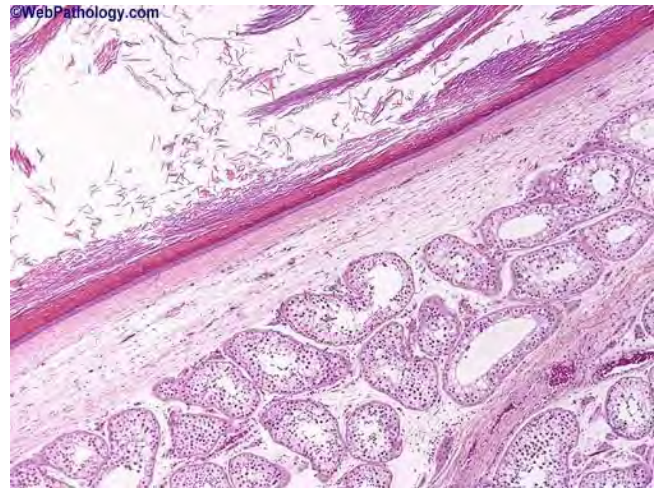
## Olgu Sunumu

39 yaşında erkek hasta yaklaşık 10 gün önce ani başlayan her iki kasık ağrısı şikayeti ile özel bir hastaneye başvurmuş ve yapılan skrotal USG 'de sağ testiste kitle olduğu söylenerek kliniğimize yönlendirilmiş. Hastanın yapılan fizik muayenesinde sol testisin normal olduğu ve sağ testis inferiorda yaklaşık 1,5 cm çaplı sert ve ağrısız kitle olduğu saptandı. Kliniğimizde yapılan skrotal USG'de sağ testis lateral inferiorda 16x14 mm boyutta düzgün sınırlı, cidarında hipoeoik kalsifikasyonlar içeren soğan kabuğu (onion skin) görünümünde intratestiküler kistik kitle tespit edildi (Resim 1). Hastanın AFP ve B-HCG değerleri nor-



Resim1. Sağ testis lat. İnf.da kitlenin USG görüntüsü.

mal sınırlıydı. Hastaya tümör ön tanısıyla yüksek inguinal eksplorasyon uygulandı. Sağ testis alt polde yaklaşık 1,5 cm lik kitle palpe edildi. Hastanın fizik muayene, USG ve tümör belirleyicileri göz önünde bulundurularak enükleasyon ve frozen inceleme için patoloji kliniğine gönderilmesine karar verildi. Spermatik kord duktus deferens ayrıştırılarak ezmez klempkle klemplendi. Tunika albuginea açılarak kitle sağlam parankim dokusu ile birlikte dissekte edildi ve frozen gönderildi. Frozen sonucunun malignite yönünde negatif gelmesi üzerine işleme son verildi. Kitlenin daha sonraki patolojik incelemesinde mikroskopik olarak, granüler tabakası belirgin keratinize skuamöz epitel ile döşeli, kalsifiye fibröz duvarlı cidara sahip kistik lezyon izlendi. Kist içerisinde ve etrafında teratomatöz eleman görülmedi (Resim 2). Çevre testiste özellik saptanmadı ve bu bulgularla hastaya testiste epidermoid kist tanısı konuldu.



Resim2. Epidermoid Kist patoloji görüntüsü

## Tartışma

Testiküler epidermoid kistler, histogenezi hala tartışmalı olan benign lezyonlardır ve malign potansiyel taşıyan dermoid kist ve teratomlardan ayırt edilmelidir. Epidermoid kistler, dermoid kistlerden çok katlı yassı epitelle ilişkili deri eklerini içermemesi ve teratomlardan çok katlı yassı epitel dışında diğer germ hücre tabakalarını içermemesi ile ayrılabilir. Aynı zamanda epidermoid kistlerde aşağıdaki kriterlerin bulunması mutlaka gereklidir. Bunlar; kist testis parankimi içinde yer almalı, amorf materyal içermeli, kist duvarı fibröz dokudan oluşmalı, teratomatöz elemanlar lümeninde, kist duvarı veya yakın parankiminde bulunmamalı, kist duvarı tunika albugineadan ayrı olmalıdır [3]. Ultrasonografi testiküler kitlenin varlığının doğrulanması ve diğer testisin de kontrol edilmesi için gerekli bir tanısal yöntemdir. Ultrasonografinin intratestiküler kitlelerde sensitivitesi %90'nın üzerindedir ve kitlenin intra veya ekstratestiküler olduğu konusunu belirlemek için önemli bir rol oynar. Ancak enfarkt, orşit, atrofi, hematoma ve benign tumor gibi bazı benign olaylar tümör ile karışabildiğinden USG'nin spesifitesi daha düşüktür (% 44.4). Bu yüzden aksi ispatlanana kadar tüm intratestiküler kitleler malign kabul edilmelidir [4]. Epidermoid kistler; ultrasonografik olarak keskin sınırlı, oval ya da yuvarlak, hipoeoik görülen fibröz bir duvarı bulunan ve hipo-hiperekoik konsantrik soğan zarı görünümünde bir ring içeren kistlerdir [5]. Cerrahiden önce testis içi kitlenin lokalizasyonu ve büyüklüğü iyi değerlendirilmelidir. Testis tümörünün multifokal olabilmesi nedeniyle tümörden uzak bölgedeki küçük nodülleri tespit etmede USG yetersiz kalabilmektedir. Bu nedenle koruyucu cerrahi yapılacak olgularda USG'ye ek olarak T1 ve T2 ağırlıklı Magnetik Rezonans Görüntüleme (MRI)'nin de yapılması önerilmektedir. MRI cerraha tümör sınırıyla ilgili güvenli bir ortam hazırlamaktadır. T2 ağırlıklı MRI'da kitledeki yüksek sinyal dansitesi etrafında düşük sinyal dansitesinin kenarda gözlenmesi; T1 ağırlıklı MRI'da ise kontrast tutmaması öküz gözü (bull eye) görünümünü verir ve bu epidermoid kist ya da benign teratom tanısı olasılığını kuvvetlendirmektedir [6].

Prepubertal olgularda testis koruyucu cerrahi uygulanmaktadır. Çünkü çocukluk çağı testiküler neoplazmlarının yaklaşık % 30'u benignidir [7]. Erişkinlerde ise bazı kaynaklarda epidermoid kistin tedavisinde ultrason da dahil olmak üzere preoperatif kesin tanısı mümkün olmadığından karşı testiste normal ise radikal orşiektomi önerilmektedir [3].

Buna karşıt olarak son yıllarda prepubertal olgularda olduğu gibi erişkin olgularda görülen epidermoid kistlerde de fizik muayene, epidermoid kist ile uyumlu USG bulguları, normal tümör belirleyicileri ve bununla birlikte frozen sonucu da göz önünde bulundurularak testis koruyucu cerrahi önerilmektedir [2].

Sunduğumuz olguda radyolojik görüntülemenin epidermoid kist ile uyumlu olması, normal AFP ve B-HCG düzeylerinin gözlemlenmesi, tümör çapının küçük olması ve frozen sonucunun malignite yönünden negatif gelmesi üzerine testis koruyucu cerrahi uygulandı.

Testis koruyucu cerrahi yalnızca bilateral testis tümörü ya da soliter testiste değil, diğer testisin sağlam olduğu durumlarda da yapılabilmektedir. Çünkü sağlam testis travma, hastalık yada koinsidental testis tümörü nedeniyle zamanla kaybedilebilir. Ayrıca testis tümörü ön tanısıyla radikal orşiektomi yapılan olguların %31'inde nedenin benign tümör olduğu saptanmıştır [8].

Sonuç olarak; organ koruyucu cerrahi günümüzde orşiektomiye alternatif olarak bilateral testis tümöründe, soliter testis tümöründe, benign tümörlerde uygulanabilir.

Prepubertal dönemde olduğu gibi erişkinlerde de klinik ve radyolojik özellikler ile frozen inceleme sonuçları göz önünde bulundurularak testiküler kitlelerde organ koruyucu cerrahi tercih edilebilir. Böylelikle gereksiz organ kaybının önlenmesi sağlanmış olur.

#### **Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı**

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

#### **Kaynaklar**

1. Moghe PK, Brady AP. Ultrasound of testicular epidermoid cysts. Br J Radiol 1999;72(862):942-5.
2. Heidenreich A, Engelman UH, Vietsch HV, Derschum W. Organ preserving surgery intestikular epidermoid cysts. J Urol 1995;153(4):1147-50.
3. Ross JH, Kay R, Elder J. Testis sparing surgery for pediatric epidermoid cysts of the testis. J Urol 1993;149(2):353-6.
4. Passarella M, Usta MF, Bivalacqua TJ, Hellstrom WJ, Davis R. Testicular-sparing surgery: a reasonable option in selected patients with testicular lesions. BJU International 2003;91(4): 337-40.
5. Docal I, Crespo C, Pardo A, Prieto A, Alonso P, Calzada J. Epidermoid cyst of the testis: a case report. Pediatr Radiol 2001;31(5):365-7.
6. Chandak P, Shah A, Taghizadeh A, Tiptaft R, Dasgupta P. Testis-sparing surgery for benign and malignant testicular tumours. Int J Clin Pract 2003;57(10):912-3.
7. Bucksphen MB, Sheldan SC, Klotz PG, Pritzker KP. Epidermoid cysts of the testicle. J Urol 1985;134(5):960-1.
8. Valla JS. Testis sparing surgery for benign testicular tumors in children. J Urol 2001;165(6):2280-3.

#### **How to cite this article:**

Barut O, Karakeci A, Ozan T, Firdolas F. Testicular Epidermoid Cyst and Testis Sparing Surgery. J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 469-71.



## Traumatic Dissecting Aneurysm of Superficial Temporal Artery: A Case Report

### Yüzeyel Temporal Arterde Travmatik Diseksiyon Anevrizması: Olgu Sunumu

Travmatik Diseksiyon Anevrizma / Traumatic Dissecting Aneurysm

Ali Riza Gezici<sup>1</sup>, Yasar Dagistan<sup>1</sup>, Kamil Gurel<sup>2</sup>, Emine Dagistan<sup>2</sup>, Nezih Ozkan<sup>1</sup>  
<sup>1</sup>Neurosurgery, <sup>2</sup>Radiology, Abant İzzet Baysal University, Medical School, Bolu, Turkey

#### Özet

Süperfisyal temporal arterin (STA) travmatik anevrizmaları çok nadir olarak oluşur. Burada, nadir görülen ve künt travmaya bağlı oluşan STA'nın diseksiyon anevrizması olgusunu sunduk. 22 yaşında erkek bir hasta sağ temporal bölgede ağrısız ve pulsatile tek bir şişlik şeklindeki kitle ile başvurdu. Sekiz ay önce kafatası'nda kırık olmaksızın sağ temporal bölge üzerinde izole travmatik bir yaralanması mevcuttu. STA'nın travmatik anevrizması tanısı koyuldu. Anestezi altında anevrizma kompleksi eksize edildi.

#### Anahtar Kelimeler

Süperfisyal Temporal Arter; Travmatik Anevrizma; Cerrahi Eksizyon

#### Abstract

Traumatic aneurysms of the superficial temporal artery (STA) are a rare occurrence. Here, we report a very rare case of dissecting aneurysm of superficial temporal artery caused by blunt trauma. 22 year man, admitted with a solitary painless, pulsatile swelling in the right temporal region. 8 months ago, he had closed head injury over right temporal region without a skull fracture. A traumatic aneurysm of the STA was diagnosed. Under anesthesia, the aneurysm was completely excised.

#### Keywords

Superficial Temporal Artery; Traumatic Aneurysm; Surgical Excision

DOI: 10.4328/JCAM.3301

Received: 08.02.2015 Accepted: 25.02.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 472-4

Corresponding Author: Yasar Dagistan, Abant İzzet Baysal University, Medical School, Bolu, Turkey.

T.: +90 3742534656 F.: +90 3742534615 E-Mail: dagistanyasar@hotmail.com

**Introduction**

Traumatic aneurysms (true or pseudo) of superficial temporal artery (STA) are a rare and most of the cases are caused by blunt trauma. Young men are predominantly affected. Symptoms usually develop 2–6 weeks after the initial injury [1,2]. The pseudoaneurysms are more common than true STA aneurysm [2,3]. In the English literature, there was a single case published as a dissecting aneurysm in STA and it was reported as a spontaneous dissecting aneurysm, not traumatic [4]. Most of the aneurysms of STA are on the anterior branch; the proximal STA or its posterior branch is more rarely affected [5].

**Case Report**

A 19-year-old gentleman presented with a solitary painless, pulsatile swelling in the right temporal region. 8 months ago, he had closed head injury over the right temporal region without a skull fracture. 2 months later the patient noticed gradually growing, painless pulsatile mass in this region. Also, the mass expanded when the patient coughed or exercised. On the examination, the mass was well defined, pulsatile, non-tender and measured about 2 cm x 1 cm (Fig. 1). The pulsations in the swelling diminished when pressure was applied proximally over the STA. He was investigated with Doppler USG, CT with contrast and selective external carotid angiography (ECA). Doppler USG confirmed the presence of blood flow and thrombus within the mass and diagnosis of the superficial temporal artery (STA) aneurysm (Fig. 2). ECA demonstrated a thrombosed 2-3 cm fusiform aneurysm with 7-8 mm intimal dissection flap, both the true and pseudo lumen, arising from parietal branch of the right STA (Fig. 3a-b).

Under local anesthesia, following the identification of the aneurysm and parent vessels with careful and meticulous dissection of the surrounding tissue, the proximal and distal parent vessels of the aneurysm were ligated; the aneurysm was completely excised (Fig. 4). Histologic examination exhibited the presence of intimal separation but there was no evidence of atherosclerosis.

**Discussion**

The mechanism underlying the development of an aneurysm is unknown but commonly is considered that injury leads to a dissection of the arterial wall. The pseudoaneurysm is charac-



Fig. 1. Small pulsatile mass at the right temporal scalp (arrow)

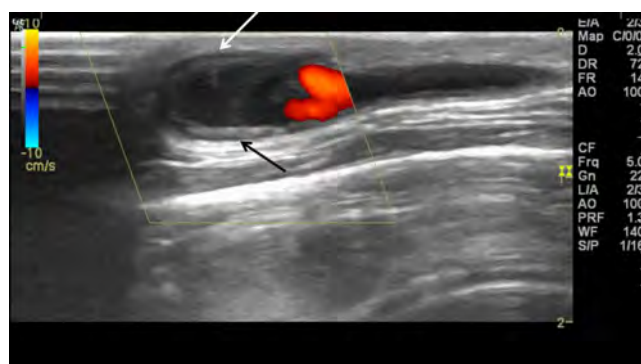


Fig. 2. Doppler view demonstrating thrombus and flow (red color) within the aneurysm

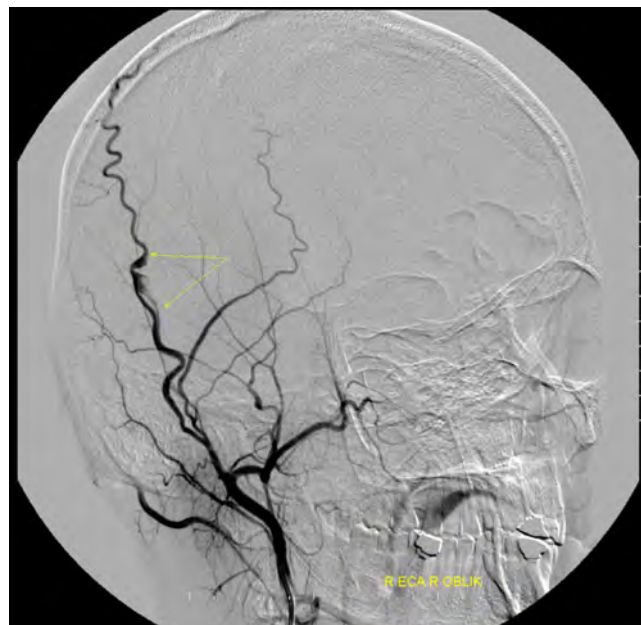


Fig. 2. Doppler view demonstrating thrombus and flow (red color) within the aneurysm

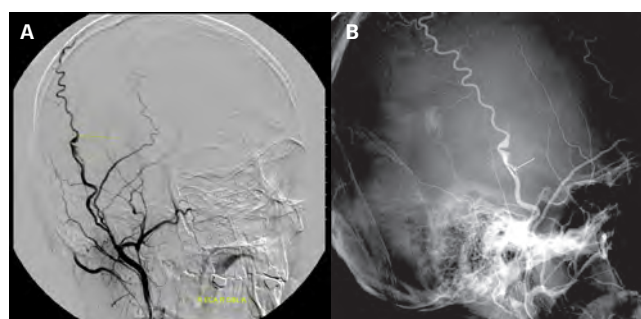


Fig. 3. The fusiform aneurysmal dilatation of parietal branch of superficial temporal artery (arrows) is seen on right external carotid artery injection image obtained in right oblique projection(A). The intimal flap is clearly seen within the fusiform aneurysmal dilatation of superficial temporal artery (arrow) on native image of right external carotid artery injection obtained in lateral projection (B).

terized by complete or incomplete break in arterial wall, with subsequent hematoma formation. Eventually, lyses of the organized hematoma results in a connective tissue sac which communicates with arterial circulation. This leads to ongoing pseudo aneurysmal expansion. Whereas, the development mechanism of traumatic true aneurysms may be different; the vessel walls usually are weakened by a trauma, without a break in the wall. So, the true aneurysms are localized or diffuse arterial dilations that all the layers of arterial wall are intact [6]. Also, weaknesses in a vessel wall in true aneurysms may be congenital or associated with atherosclerosis [7]. In this case,

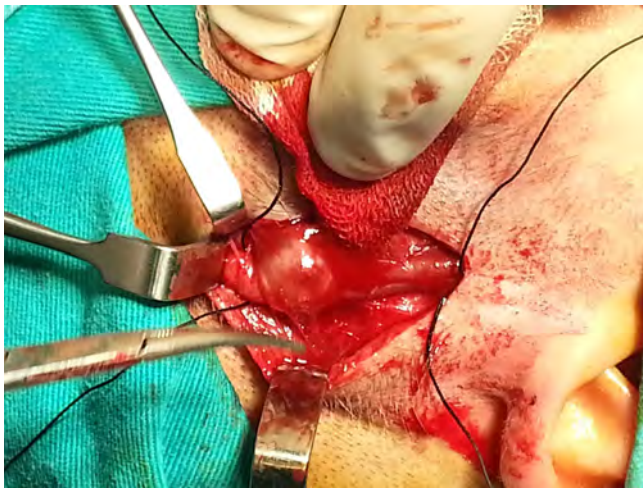


Fig. 4. View of the aneurysm excised.

the trauma probably leads to injury the intimal layer and then separation of the intimal layer from the media. So, consisting of the fusiform aneurysm may be considered a pseudo aneurysm.

These aneurysms may have visible or palpable pulsations as a consequence of a progressive dilatation of damaged arterial wall. But sometimes cause of complete thrombosis of the aneurysmal sac, pulsations may be absent. Therefore, the differential diagnosis should be made from a sebaceous cyst, lymphadenopathy, lipoma, arteriovenous fistula, simple haematoma, neuroma of the supra orbital nerve or an abscess [2,8].

The time from injury to detection of aneurysm diagnosis is approximately 2-6 weeks [2,8]. The most common presenting symptom is a pulsatile, constantly increasing mass at the temporal-parietal region accompanied by a throbbing headache [9]. The history and physical examination supported by Doppler USG evaluation are often sufficient to make the diagnosis of STA aneurysms. Other imaging techniques such as CT with contrast, CT and MRI angiography may be necessary in cases where intracerebral aneurysms are suspected [5]. Also; conventional angiography may be reserved for diagnosis of more complicated cases or endovascular treatment.

Although STA aneurysms have a relatively benign course, life-threatening hemorrhages also have been reported [7,10]. Therefore, when a STA aneurysm is diagnosed, surgery is recommended. Accepted other indications for surgery are pain, rapidly increasing size and cosmetic problems.

Superficial temporal artery aneurysm treatment options may be divided into three sections; conservative approach, endovascular embolization and surgical excision. Intermittent compression technique can be used for small aneurysms, but usually results in failure [11]. The endovascular techniques, in regions less accessible to surgical intervention can be used. Also direct embolic or thrombotic agent injection into the aneurysm is a simple method, but complications, such as an allergic reaction, risk of re-canalization, intravascular thrombosis, scalp necrosis and a distal ischemia have been reported. Currently, standard surgery remains the definitive treatment and includes ligation of the afferent and efferent vessels of STA, followed by lesion excision under local anesthesia [8]. Vascular supply is very rich in this area and therefore reconstructions of the vessels are not necessary. The standard surgical procedure is simple and effective with no reported recurrences.

### Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

### References

1. Inoue Y, Iwamoto T, Kitoh M, Yoshimura K, Ono T. Traumatic aneurysm of the temporal artery: a report of five cases. *J Dermatol* 1997;24(4):246-8.
2. Evans CC, Larson MJ, Eichhorn PJ, Taylor RS. Traumatic pseudoaneurysm of the superficial temporal artery: two cases and review of the literature. *J Am Acad Dermatol* 2003;49(5):S286-8.
3. Johnston KW, Rutherford RB, Tilson MD, Shah DM, Hollier L, Stanley JC. Suggested standards for reporting on arterial aneurysms. Subcommittee on Reporting Standards for Arterial Aneurysms, Ad Hoc Committee on Reporting Standards, Society for Vascular Surgery and North American Chapter, International Society for Cardiovascular Surgery. *J Vasc Surg* 1991;13(3):452-8.
4. Fujii S, Kajikawa H, Yamamura K, Wada M, Shimamoto F. Spontaneous dissecting aneurysm of the superficial temporal artery: a case report. *No Shinkei Geka* 1995;23(9):797-800.
5. Conner WC III, Rohrich RJ, Pollock RA. Traumatic aneurysms of the face and temple: a patient report and literature review, 1644 to 1998. *Ann Plast Surg* 1998;41(3):321-6.
6. Ysa A, Arruabarrena A, Bustabad MR, Perez E, del Campo A, Garcia-Alonso J. Images in vascular medicine. True aneurysm of the superficial temporal artery. *Vasc Med* 2008;13(3):295-6.
7. Pipinos II, Dossa CD, Reddy DJ. Superficial temporal artery aneurysms. *J Vasc Surg* 1998;27:374-7.
8. Park SK, Bong HJ, Jang DK, Yoon WS, Han YM, Jang KS. Traumatic true aneurysm of the superficial temporal artery. *Aesthetic Plast Surg* 2012;36(4):934-7.
9. Lewis EC 2nd, Southwick EG. Aneurysm of the superficial temporal artery. *Arch Dermatol* 1978;114(4):587-8.
10. Uchida N, Sakuma M. Atherosclerotic superficial temporal artery aneurysm: report of a case. *Surg Today* 1999;29(6):575-8.
11. Myer CM 3rd, Donegan JO. Traumatic aneurysm of the proximal superficial temporal artery. *Head Neck Surg* 1982;5(2):181-5.

### How to cite this article:

Gezici AR, Dagistan Y, Gurel K, Dagistan E, Ozkan N. Traumatic Dissecting Aneurysm of Superficial Temporal Artery: A Case Report. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 472-4.



## Propylthiouracil Hepatotoxicity Seen with Jaundice and its Treatment by Steroids

### Propiltiourasil Kullanımına Bağlı Hepatotoksik Sarılık ve Steroidle Tedavisi

Propiltiourasil Sarılık / Propylthiouracil Jaundice

Oğuzhan Aksu, Bünyamin Aydın, Banu Kale Köröğlu, Mehmet Numan Tamer  
Endokrinoloji ve Metabolizma BD, İç Hastalıkları ABD, Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi, Isparta, Türkiye

#### Özet

Propylthiourasil (PTU) hipertiroidi tedavisinde yaygın olarak kullanılmaktadır. PTU'ün hepatotoksik etkisi oldukça nadirdir ve mekanizması bilinmemektedir. Hepatotoksik etkisi sıklıkla subklinik olmakla birlikte nadiren karaciğer nekrozuna da yol açabilmektedir. Olguların çoğunda PTU'nun kesilmesinden sonra karaciğerin tamamen iyileşmesine rağmen, ender olarak ilacın kesilmesine rağmen karaciğer nekrozuna da neden olabilir.

#### Anahtar Kelimeler

Türkçe anahtar kelimeleri lütfen secretary@jcam.com.tr gönderiniz

#### Abstract

Propylthiouracil (PTU) is widely used in the treatment of hyperthyroidism and rarely leads to hepatotoxicity by an unknown mechanism. The hepatic damage caused by propylthiouracil is generally subclinical, but very rarely, it may be associated with severe liver injury and submassive hepatic necrosis. Although discontinuing of the drug result in full recovery in most cases, hyperbilirubinemia and liver damage may increasingly continue in spite of discontinuation of the drug.

#### Keywords

ingilizce keywords lütfen secretary@jcam.com.tr gönderiniz

DOI: 10.4328/JCAM.3315

Received: 16.02.2015 Accepted: 27.02.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 475-7

Corresponding Author: Bünyamin Aydın, Endokrinoloji ve Metabolizma Hastalıkları, Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi, 3200, Isparta, Türkiye.

T.: +90 2462119221 GSM: +905056790625 E-Mail: aydinbunyamin@yahoo.com

## Introduction

Propylthiouracil (PTU) is widely used in the treatment of hyperthyroidism. Hepatotoxicity is seen 0.2-0.3 % at the patients using thionamides, but actually the real incidence is unknown. Hepatic damage seen in patients that use PTU is the mixed type in which both cytotoxic and cholestatic pattern seen together with elevated transaminase values. The pathogenesis of PTU hepatotoxicity is unclear, but it's thought to be an allergic response to the host [1]. The hepatic damage caused by PTU is generally subclinical. Very rarely PTU therapy may be associated with severe liver injury and submassive hepatic necrosis. But, in most cases, discontinuing of the drug result in full recovery [2]. However, in spite of discontinuation of the drug, hyperbilirubinemia and liver damage may continue to escalate. In this case, treatment options and type of treatment is a controversial issue.

We reported a treatment with steroids and radioactive iodine (RAI) for a case of Graves' disease in a young female patient with progressively increased bilirubin levels from PTU, even after discontinuation of the drug.

## Case Report

An 18-year-old female patient with the complaints of palpitations, fatigue, insomnia, nervousness, tremor in hands, was diagnosed with Graves' disease after a work up 1.5 years ago and was put on PTU 300 mg/day, propranolol 50 mg/day. The liver function tests were normal, no jaundice and hepatitis episodes were seen and no alcohol or drug usage before the initiation of the drug therapy. At routine checks; AST: 186 IU/ml (10-37), ALT: 414 IU/ml (0-45), ALP: 218 IU/ml (30-120), GGT: 110 IU/ml (10-60), total bilirubin: 2 mg/dl, direct bilirubin: 1.3 mg/dl was determined so drug was stopped. But, after 1 month, due to the recurrence of hyperthyroidism high-dose propylthiouracil (300 mg/day) treatment was started again (in another hospital). The patient had a history in the next 6 months to start and stop PTU for a few more times in the same way. When referred to our clinic with mild jaundice, AST: 623 IU/ml, ALT: 942 IU/ml, GGT: 69 IU/ml, albumin: 4.4 mg/dl total bilirubin 5.6 mg/dl, direct bilirubin: 4.75 mg/dl, prothrombin time (PT): 14 sec. were determined and she was admitted to the service. At the physical examination during the time of admission; Pulse: 70/min, blood pressure: 100/60 mm/Hg were determined. The patient's skin was significantly icteric but there was no Graves ophthalmopathy and skin lesions. Both lobes of the thyroid were diffusely enlarged. Liver and spleen were not palpable. Not continued medication during hospitalization, in spite of falling transaminases rather total / direct bilirubin levels remained high (AST: 84 IU/ml, ALT: 195 IU/ml, GGT: 30 IU/ml, albumin: 4.2 mg/dL, total bilirubin: 14.6 mg/dL, direct bilirubin: 8.2 mg/dl). At the thyroid

function tests (as result of the influence of PTU), TSH: 0.14 IU/ml (0.34-4.2) (FT3: 3.72 pg/ml (2.5-3.9), FT4: 1.36 ng/dl(0.7-1.4), Anti-TPO (+), anti-TG: (+). Thyroid hormone receptor antibody (TRab) could not be performed because of financial reasons. Ultrasonography revealed a diffusely swollen thyroid with low echogenicity, thyroid blood flow increased and nodule was not observed. The repeated hepatitis virus serologies (HBsAg, hepatitis B infection, HbeAg, antiHbc IgM, anti-HCV) were observed negative. Autoimmune hepatitis antibodies (ANA, AntidsDNA, AMA, LKM-1, Anti-SSA, anti SSB, Sm-antibody, ANCA, AntiJo, AntiSCL 70, Anti SM/RNP) were seen as negative. No pathology was observed at the repeated abdominal ultrasound imaging. With absolute resting AST/ALT levels didn't rise over twice, but on the 23rd day of follow-up total/direct bilirubin rose up to 26.0/12.7 mg/dl and GGT:42 IU/ml. During the hospitalization period, thyrotoxic situation of the patient is increased, surgical treatment was considered but given up as the surgery under anesthesia seemed to be risky. After these values, methyl prednisolone 60 mg/day treatment was started. On the next day after the initiation of steroid was observed that total bilirubin and direct bilirubin were 25.7 mg/dl and 12.7 mg/dl, respectively. RAI treatment (high-dose 18 milliCurie) was performed to the patient after the second day of treatment with steroid therapy. In the following days, progressive improvement was seen in bilirubin levels and thyroid function tests. Steroid therapy was continued with tapering gradually in 3 months. Treatment with radioactive iodine maintained euthyroid state at the follow-up of patient. During follow-up within 1 year after the cessation of steroid therapy, all values were normal (Table 1).

## Discussion

Graves' disease (GD) is an autoimmune disorder in which antibodies activate the thyrotropin receptor (TSHR) causing a hyperfunction of the thyroid gland. This activation stimulates follicular hypertrophy and hyperplasia, leading to thyroid enlargement and increases thyroid hormone production. The three treatment modalities for Graves' hyperthyroidism include the use of thionamides (antithyroid drugs: PTU, methimazol (MMI) and carbimazole), radioactive iodine (RAI) therapy or surgery. Patients in Australia, the UK and Europe are more likely than their North American counterparts to receive an initial course of thionamide therapy prior to the consideration of RAI. Surgery has the highest long-term remission rate (95%) but is not without risks [3].

PTU has been used widely in the treatment of hyperthyroidism. During the use of PTU, skin reactions, agranulocytosis, arthralgia, hepatotoxicity, vasculitis, sialadenitis, hypoglycemia, pancreatitis can be seen as the undesired side effects PTU is

a derivative of thiourea, may cause hepatic damage and rarely cholestasis. Although the pathogenesis is unclear, hepatotoxicity of PTU is thought to be responsible for the allergic response in the host [1]. PTU-induced hepatotoxicity is usually seen in the first 90 days after treatment has begun, but cases of hepatotoxicity have been reported, even after 1 year of treatment initiation [4]. In our patient, the first of toxicity was seen 1 year

Table 1. Patient's biochemical values

	Before PTU	After PTU	She was admitted to the service	Next values	After methyl-prednisolone and RAI	After 3 months	After 1 year
AST IU/ml (10-37)	32	186	623	84	39	38	34
ALT IU/ml (0-45)	40	414	942	195	44	42	31
GGT IU/ml (10-60)	56	110	69	30	54	28	36
T.Bil mg/dl (0,3-1,2)	0.9	2	5.6	14.6-25.7	1.0	1	1,1
D.Bil. (0-0,2)	0.1	1.3	4.75	8.2-12.7	0.1	0,14	0,16



after the initiation of drug therapy and improved after discontinuation of the drug. Once again, the development of toxicity after restarting the drug therapy, supports the drug-induced toxicity. Therefore, these patients should be monitored closely for hepatotoxicity. Hyperthyroidism itself can cause liver dysfunction and mild enzyme elevation, jaundice is much less common finding [5]. The height of bilirubin seen in our case, is contributed to hyperthyroidy, however, 2 times transaminase, ALP, GGT elevation seen under treatment with PTU, the recovery of findings after the treatment is stopped in the first reaction and determination of biochemical parameters compatible with mixed type hepatic damage supports that the elevation of serum bilirubin was induced by PTU. In this case, immediate PTU treatment discontinuation is needed. In our case patient was using 300 mg PTU and treatment was cut off. In the majority of cases, the support treatment seems to be useful, but secondary complications of liver failure deaths can be seen up to 25%. Therefore, early detection of fulminant hepatitis has great importance (<11 years and> 40 years of age), jaundice lasts more than 7 days, prolonged prothrombin time, encephalopathy, bilirubin level is high [6]. PTU- induced liver damage biopsy specimens with intracanalicular cholestasis and mild periportal inflammation were seen, but hepatocellular architecture preserved in general [5]. Our patients scheduled for liver biopsy to determine the extent of the damage, but operation failed as the patient refused.

Hanson recommended the following practical criteria for the diagnosis of hepatitis caused by the use of drugs; 1-clinical and laboratory evidence of hepatocellular injury, 2-symptoms begin to be associated with drug therapy time, 3- serological evidence of HAV, HBV, CMV or EBV infection, 4- absence of conditions that can cause acute hepatic damage such as shock and sepsis, 5- absence of chronic liver damage findings, 6-particularly the absence of other drugs used for the treatment known as hepatotoxins [7].

In our case, there was no history about drug use, transfusion of blood or blood products. Our patient did not have a clinic application suggestive of liver disease, there was no situation that can cause acute hepatic damage as well. Clinical and laboratory findings of hepatocellular injury were present. In addition, anti-HCV and HCV-RNA were negative. No history of alcohol abuse or alcoholic liver disease was present. Serological studies of viral etiology were excluded. However, drug treatment was associated with a temporary onset of symptoms. Also there was no use of any medication known as hepatotoxic. All these findings seem to be consistent with the criteria imposed by Hanson for the diagnosis of hepatitis caused by drugs [7].

As no specific treatment was given for hyperthyroidism prominence of thyrotoxicosis was seen. Surgical treatment was seen as risky because of the thyrotoxicosis and severe hyperbilirubinemia. There is very limited data available on the use of steroid therapy for PTU-induced liver injury.

However, at the cases reported by Ichiki and colleagues; 21-year-old graves' disease cases, serious hyperbilirubinemia developed after PTU (Total bilirubin: 23.3 mg/dl, direct bilirubin: 16.3 mg/dl) and severe liver injury (AST: 593 IU/ml, ALT: 502 IU/ml) developed patients were given 3 days 500 mg methyl prednisolone and had continued with prednisolone 30 mg orally

after. Liver function tests gradually improved after treatment and got back to normal in about 1.5 months. The first treatment to be given in case of PTU hepatotoxicity is I 131 therapy. Other alternative therapies are ipodate sodium, iopanoic acid, ate, lithium carbonate, plasmapheresis, and dialysis [8].

In our case, after exclusion of all other causes, 60 mg intravenous methyl prednisolone treatment was started. Increase in the level of bilirubin in the first days after treatment stopped the inspections of 1 mg/dl decrease in the level was observed. The following day the patient was prescribed RAI therapy. Rapid and progressive improvement in bilirubin levels were seen in the patient's follow-up. At the same time improvement at the toxic statement was observed. Steroid dose was reduced gradually and patient was discharged from hospital.

As a result, we think that the patients started PTU due to the hyperthyroidism should be followed carefully and strictly for hepatotoxicity, jaundice. Also we think that, the steroid therapy is a good alternative for the severe bilirubin level rise and jaundice caused by PTU after the exclusion of all other the reasons.

### Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

### References

1. Cooper DS. The side effects of antithyroid drugs. *Endocrinologist* 1999;9(6):457-76.
2. Cooper DS, Rivkees SA. Putting propylthiouracil in perspective. *J Clin Endocrinol Metab* 2009;94(6):1881-2.
3. Wartofsky L, Glinoe D, Solomon B, Nagataki S, Lagasse R, Nagayama Y, Izumi M. Differences and similarities in the diagnosis and treatment of Graves' disease in Europe, Japan, and the United States. *Thyroid* 1991;1(2):129-35.
4. Ruiz JK, Rossi GV, Vallejos HA, Brenet RW, Lopez IB, Escibano AA. Fulminant hepatic failure associated with propylthiouracil. *Ann Pharmacother* 2003;37(2):224-8.
5. Liaw YF, Huang MJ, Fan KD, Li KL, Wu SS, Chen TJ. Hepatic injury during propylthiouracil therapy in patients with hyperthyroidism: a cohort study. *Ann Intern Med* 1993;118(6):424-8.
6. Williams KV, Nayak S, Becker D, Reyes J, Burmeister LA. Fifty years of experience with propylthiouracil-associated hepatotoxicity: what have we learned? *J Clin Endocrinol Metab* 1997;82(6):1727-33.
7. Hanson JS. Propylthiouracil and hepatitis. Two cases and a review of the literature. *Arch Intern Med* 1984;144(5):994-6.
8. Ichiki Y, Akahoshi M, Yamashita N, Morita C, Maruyama T, Horiuchi T, at all. Propylthiouracil-induced severe hepatitis: a case report and review of the literature. *J Gastroenterol* 1998;33(5):747-50.

### How to cite this article:

Aksu O, Aydın B, Köröglü BK, Tamer MN. Propylthiouracil Hepatotoxicity Seen with Jaundice and its Treatment by Steroids. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 475-7.



## Multiple Biliary Hamartomas (Von Meyenburg Complex): A Case Report with Imaging Findings

### Multipl Biliyer Hamartom (Von Meyenburg Kompleksi): Görüntüleme Bulgularıyla Bir Olgu Sunumu

Multipl Bilier Hamartom / Multiple Biliary Hamartomas

İsmail Kartal, Hanifi Bayaroğulları  
Radyoloji Bölümü, Mustafa Kemal Üniversitesi Tıp Fakültesi, Antakya, Türkiye

#### Özet

Von Meyenburg kompleksi olarak da bilinen multipl biliyer hamartom intrahepatik safra yollarının nadir görülen benign malformasyonudur. Bu malformasyon bulunan hastalar genellikle asemptomatik olduğundan ve karaciğer fonksiyon testleri normal olduğundan dolayı tanı rastlantısal olarak konulur. Bu yazımızda 43 yaşında daha önce bilinen bir hastalığı olmayan ve dispepsi şikayetiyle hastanemize başvuran multipl biliyer hamartom olgusunu sunmayı amaçladık.

#### Anahtar Kelimeler

Multipl Biliyer Hamartom; İntrahepatik Safra Yolu; Görüntüleme Bulguları

#### Abstract

Multiple biliary hamartomas, also known as von Meyenburg complex, is a rare benign intrahepatic biliary duct malformation. Diagnosis of this disease is established incidentally because of patients with these malformation are usually asymptomatic and liver function tests are normal. In this article, we aimed to present a forty-three years old patient with multiple biliary hamartomas who admitted to our hospital with dyspepsia and no previously known disease.

#### Keywords

Multiple Biliary Hamartomas; Intrahepatic Biliary Duct; Imaging Findings

DOI: 10.4328/JCAM.3222

Received: 09.01.2015 Accepted: 03.03.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 478-80

Corresponding Author: İsmail Kartal, Radyoloji Bölümü, Mustafa Kemal Üniversitesi Tıp Fakültesi, Antakya, Türkiye.

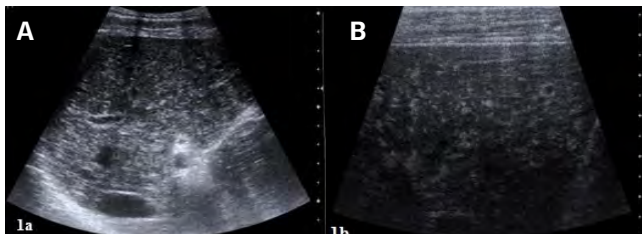
GSM: +905070343366 E-Mail: ismailkartal86@gmail.com

## Giriş

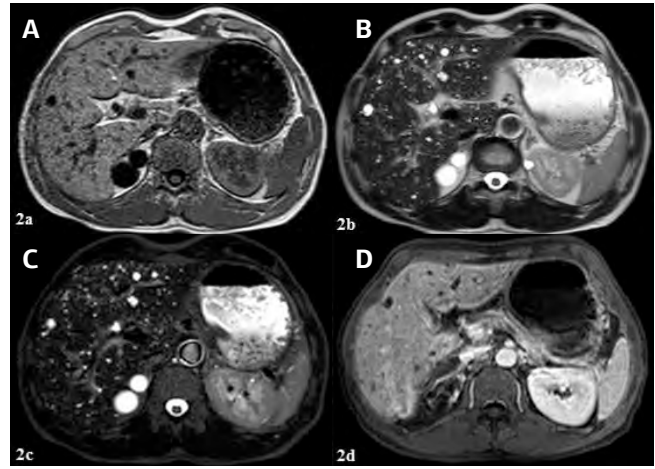
İlk kez 1918 yılında von Meyenburg tarafından tanımlanan biliyer hamartom karaciğerde intrahepatik safra yollarının nadir görülen benign lezyonlarıdır [1]. Biliyer hamartom konjenital safra kanalı malformasyonu olup embriyolojik gelişim esnasında küçük intrahepatik safra duktuslarının yeniden şekillenmesinde bozulma sonucu ortaya çıkmaktadır [2]. İnsidansı çok düşük olup otopsi serilerinde tüm vakaların %0,6 ile %5,6 arasında olduğu bildirilmektedir [3]. Benign lezyon olmasına rağmen görüntüleme çalışmalarında karaciğer sirozu, polikistik karaciğer hastalığı, mikroabse, metastaz ve Caroli hastalığı ile karışabilir. Ayrıca nadir de olsa kolanjiokarsinoma dönüşme gibi malign transformasyon görülen vakalar rapor edilmiştir [4]. Biz, bu yazıda daha önce herhangi bir hastalığı olmayan 43 yaşında dispepsi şikayetiyle hastanemize başvuran ve multipl biliyer hamartom tanısı alan olguyu görüntüleme bulgularıyla sunmayı amaçladık.

## Olgu Sunumu

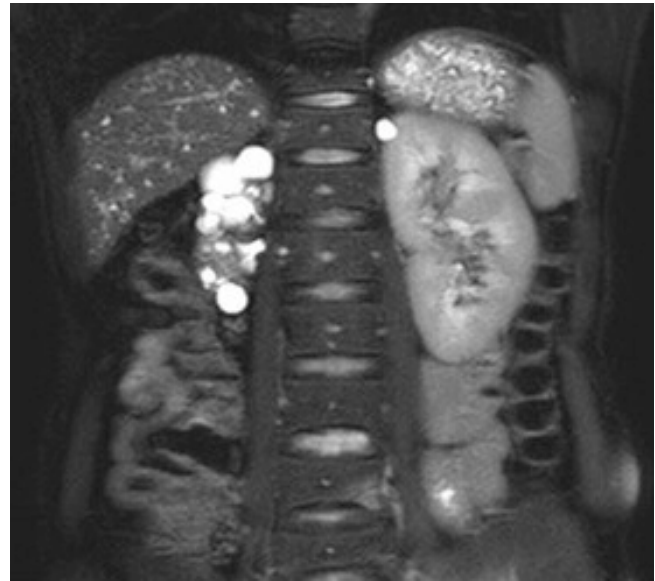
Kırk üç yaşında daha önce bilinen bir hastalığı olmayan erkek hasta dispepsi şikayetiyle ilk defa hastanemize başvurdu. Abdominal ultrasonografi (US) tetkiki ve rutin laboratuvar tetkikleri istenen hastanın laboratuvar bulgularında anlamlı bulgu saptanmadı. Abdominal US'da (Siemens Acuson Antares cihazı), abdomen probu (CH4-1 MHz) ile karaciğer parankiminde heterojen görünüm ile birlikte dağınık yerleşimli hiperekojen milimetrik boyutlarda lezyonlar izlendi (Resim 1a). Yüzeysel prob (VFX 13-5 MHz) ile bakılan karaciğer parankiminde 10 mm'den küçük çok sayıda diffüz hiperekojen nodüler lezyonlar belirgin şekilde gözlemlendi (Resim 1b). Ayrıca hastanın sağ böbreğinde çok sayıda kistik lezyon ve midede dilatasyon dikkati çekti. Hastaya karaciğerdeki lezyonların karakterizasyonu için dinamik abdomen manyetik rezonans görüntüleme (MRG) planlandı. Çekilen abdomen MRG'de T1 ağırlıklı görüntülerde hipointens (Resim 2a), T2 ağırlıklı görüntülerde hiperintens (Resim 2b), yağ baskılı serilerde belirgin hiperintens (Resim 2c) olan ve kontrastlı dinamik serilerde kontrast tutulumu olmayan (Resim 2d) 10 mm'den küçük dağınık yerleşimli multipl kistik lezyon izlendi. Sağ böbrekte atrofi ile beraber en büyüğü 3 cm çapında multipl kistler izlendi (Resim 3). Karaciğerdeki kistik lezyonların safra yolları ile ilişkisinin belirlenmesi amacı ile manyetik rezonans kolanjiopankreatografi (MRKP) çekildi. İntrahepatik-ekstrahepatik safra yollarında dilatasyon veya kistik lezyonlar ile ilişki tespit edilmedi (Resim 4). Bulgular birlikte değerlendirildiğinde hastaya multipl biliyer hamartom tanısı kondu ve malign transformasyon riski açısından takibe alındı.



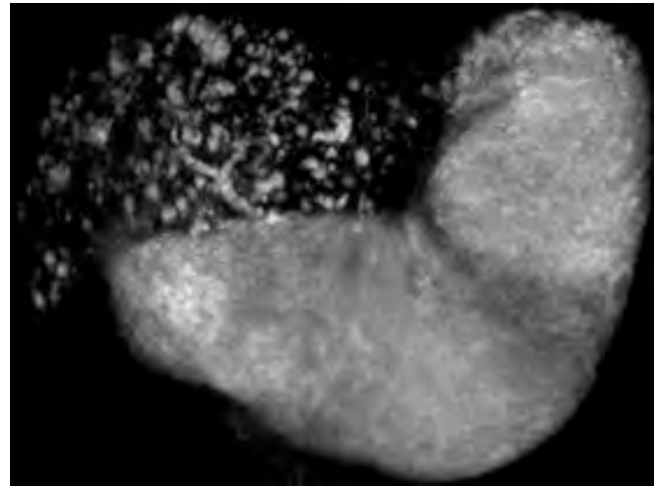
Resim 1. Konveks prob ile abdominal US'de (A) karaciğerde saptanan dağınık yerleşimli hiperekojen lezyonlara yüzeysel proba (B) bakıldığında milimetrik boyutta çok sayıda hiperekojen nodüler lezyon daha belirgin görünmektedir.



Resim 2. T1 ağırlıklı görüntülerde hipointens (A), T2 ve yağ baskılı görüntülerde hiperintens (B ve C) olan, dinamik kontrastlı serilerde kontrast tutulumu saptanmayan (D) kistik lezyonlar izlenmektedir.



Resim 3. Koronal T2 ağırlıklı görüntüde sağ böbrekte çok sayıda kistik lezyon mevcuttur.



Resim 4. MRKP görüntüsünde intra-ekstrahepatik safra yollarıyla bağlantısı olmayan kistik lezyonların karaciğer sınırları içerisinde yıldızlı gökyüzü görüntüsü oluşturması izlenmektedir. Midede belirgin dilatasyon dikkati çekmektedir.

## Tartışma

Von Meyenburg kompleksi olarak da bilinen multipl biliyer hamartom, karaciğerin benign malformasyonu olup histolojik olarak fibrotik doku tarafından çevrelenmiş 1 ile 15 mm çapları arasında intrahepatik safra yollarının kistik dilatasyonudur [5].

Bu hastalık tipik olarak klinik semptom oluşturmaz ve karaciğer fonksiyon testlerini bozmaz. Genellikle görüntüleme esnasında rastlantısal olarak saptanır. Daha önce herhangi bir rahatsızlığı olmayan hastamıza da dispepsi nedeniyle yapılan rutin incelemeler sonucu rastlantısal olarak tanı kondu. Bu hastalara ilk yapılacak görüntüleme yöntemi US'dir. Ultrasonografide lezyonların görünüşleri hipo-hiperekoik, solid veya kistik, tek veya multip olma ile birlikte genellikle multipl hiperekoik nodüller lezyonlar şeklinde olmaktadır. Luo ve ark. [6] von Meyenburg kompleksinin spesifik US bulgusu olarak iddia ettikleri kuyruklu yıldız artefaktını tanımlamışlardır. Bu görünüm dilate kistik lezyonlardan ses dalgalarının geçiş posteriorunda akustik güçlenme oluşturması sonucu oluşmaktadır. Olgumuza konveks ve yüzeyel problemler yapılan US'da en büyüğü 10 mm'yi geçmeyen dağınık yerleşimli çok sayıda hiperekojen nodüler lezyonlar izlendi. Bilgisayarlı tomografide lezyonlar net karakterize edilememekte olup karaciğerde multipl küçük hipodens lezyonlar olarak görülmektedir [3,7].

Manyetik rezonans görüntülemesinde T1'de hipointens, T2'de hiperintens, yağ baskılamalı sekanslarda belirgin hiperintens olan ve dinamik serilerde kontrastlanma göstermeyen multipl kistik lezyonlar şeklinde izlenir. MRKP intrahepatik ve ekstrahepatik safra yollarındaki dilatasyon ve anomaliyi göstermede ve bunların karaciğerdeki kistik lezyonlar ile ilişkisini değerlendirmede BT ve MRG'den üstündür [7]. Olgumuza çekilen MRG ve MRKP görüntülerinde karaciğerde safra yolları ile ilişkisi olmayan ve kontrastlanma göstermeyen çok sayıda küçük kistik lezyonlar izlendi. İntrahepatik ve ekstrahepatik safra yollarında dilatasyon veya anomali saptanmadı. Gong ve ark. [8] MRKP'nin MIP(maximum intensity projection) imajlarında biliyer hamartomların karaciğer sınırları içerisinde yıldızlı gökyüzü manzarası oluşturduğunu göstermişlerdir. Bizim olgumuzda da MIP imajlarda bu şekilde görünüm mevcuttu (Resim 4).

Multipl biliyer hamartom ayırıcı tanısında karaciğerde mikroabsesler, polikistik böbrek hastalığı ile birlikte olan karaciğer kistleri, Caroli hastalığı, metastaz gibi durumlar yer almaktadır. Mikroabses ve metastaz durumlarında klinik bulgular görüntülemeye katkı sağlamakla beraber kontrastlı görüntülerde lezyonların kontrast tutması biliyer hamartomdan ayırıcıları sağlamaktadır. Caroli hastalığında biliyer ağaçla bağlantılı çok sayıda kistik lezyon olmakla birlikte bizim olgumuzun MRKP görüntülerinde böyle bir durum izlenmedi. Polikistik böbrek hastalığı ile birlikte olabilen polikistik karaciğer hastalığında ise her iki böbrekte ve karaciğerde daha büyük boyutlarda kistik lezyonlar ve böbrek boyutlarında artış olmaktadır. Bizim olgumuzda sağ böbrek boyutları azalmış olup sağ böbrekte çok sayıda kistik lezyon mevcuttu (Resim 3). Görüntüleme bulgularının iyi bilinmesi ayırıcı tanıyı kolaylaştırmanın yanında biyopsi gibi invaziv olan metodlara da ihtiyacı azaltmaktadır [7].

Sonuç olarak histopatolojik inceleme gerekmeden tipik görüntüleme bulgularıyla multipl biliyer hamartom tanısı konabilir. Hastalar genelde asemptomatik olduğundan ve biliyer hamartomlar düşük de olsa malign transformasyon gösterebileceğinden tanı ve takip önemlidir.

#### Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

#### Kaynaklar

1. Venkatanarasimha N, Thomas R, Armstrong EM, Shirley JF, Fox BM, Jackson SA. Imaging features of ductal plate malformations in adults. *Clin Radiol* 2011;66:1086-93.
2. Desmet VJ. Pathogenesis of ductal plate malformation. *J Gastroenterol Hepatol* 2004;19:356-60.
3. Redston MS, Wanless IR. The hepatic von Meyenburg complex: prevalence and association with hepatic and renal cysts among 2843 autopsies. *Mod Pathol* 1996;9:233-7.
4. Jain D, Sarode V, Abdul-Karim F, Homer R, Robert M. Evidence of the neoplastic transformation of Von-Meyenburg complexes. *Am J Surg Pathol* 2000;24:1131-9.
5. Lev-Toaff AS, Bach AM, Wechsler RJ, Hilpert PL, Gatalica Z, Rubin R. The radiologic and pathologic spectrum of biliary hamartomas. *AJR Am J Roentgenol* 1995;165:309-13.
6. Luo TY, Itai Y, Eguchi N, Kurosaki Y, Onaya H, Ahmadi Y, et al. Von Meyenburg complexes of the liver: imaging findings. *J Comput Assist Tomogr* 1998;22:372-8.
7. Zheng R, Zhang B, Kudo M, Onda H, Inoue T. Imaging findings of biliary hamartomas. *World J Gastroenterol* 2005;28:6354-9.
8. Gong J, Kang W, Xu J. MR imaging and MR Cholangiopancreatography of multiple biliary hamartomas. *Quant Imaging Med Surg* 2012;2(2):133-4. DOI: 10.3978/j.issn.2223-4292.2012.03.01.

#### How to cite this article:

Kartal İ, Bayaroğulları H. Multiple Biliary Hamartomas (Von Meyenburg Complex): A Case Report with Imaging Findings. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 478-80.



## Anesthesia Management in Simultaneously Coronary Artery By-Pass Grafting and Lobectomy Surgery: Case Report

### Eş Zamanlı Koroner Arter Greftleme ve Lobektomi Cerrahisinde Anestezi Yönetimi: Olgu Sunumu

Kalp ve Akciğer Hastalıklarının Birlikte Cerrahi Tedavisinde Anestezi /  
Anesthesia in Combined Surgical Treatment of Lung And Heart Diseases

Gökhan Özkan<sup>1</sup>, Mehmet Emin İnce<sup>1</sup>, Suat Doğancı<sup>2</sup>, Vedat Yıldırım<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Department of Anesthesiology and Reanimation, <sup>2</sup>Department of Cardiovascular Surgery,  
Gulhane Military Academy of Medicine, Ankara, Turkey

#### Özet

Son zamanlarda koroner arter hastalığı ve akciğer tümörü olan hastalarda kardiyo-pulmoner cerrahiler artan sıklıkla eş zamanlı olarak uygulanmaktadır. Mortalite ve morbiditesi yüksek olan bu iki ameliyatın zamanlaması ile ilgili tam bir fikir birliği yoktur. Benzer şekilde bu hastalardaki anestezi yönetimi ile ilgili de olgu sunumları ve klinik deneyimler dışında yapılmış geniş çaplı klinik çalışma bulunmamaktadır. Bu olgu sunumunda eş zamanlı kardiyo-pulmoner cerrahi yapılacak 89 yaşındaki erkek hastadaki anestezi yönetimimizi sunmayı amaçladık.

#### Anahtar Kelimeler

Akciğer Kanseri; Kardiyak Cerrahi; Anestezi

#### Abstract

Recently, cardio-pulmonary surgical procedures were simultaneously performed in patients with coronary artery disease and lung tumors. There is no complete consensus about the timing of these high rate mortality and morbidity surgery. Similarly, there wasn't any large number clinical trial related to the anesthetic management of these patients except case reports and clinical experiences. In this case report, we aim to present anesthesia management in a 89-year-old male patient undergoing simultaneous cardio-pulmonary surgery.

#### Keywords

Lung Cancer; Cardiac Surgery; Anesthesia

DOI: 10.4328/JCAM.3298

Received: 06.02.2015 Accepted: 04.03.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 481-3

Corresponding Author: Gökhan Özkan, GATA Anesteziyoloji ve Reanimasyon A.D. Etlik, Ankara, Turkey.

T.: +90 3123045218 E-Mail: dr.gozkan@gmail.com

## Giriş

Koroner arter hastalıkları mortalite ve morbiditenin önemli sebeplerindedir [1]. Akciğer kanserleri de ölümlerin en yaygın sebeplerinden olmasına rağmen bu iki hastalığın birlikteliği beklendiği kadar yaygın değildir [2]. Bu iki hastalığın tedavisinin aynı anda yapılması ile ilgili tam bir birliktelik yoktur. Fikir ayrılığının temelinde ise bu iki major ameliyatın zamanlaması ve sıralanması yatmaktadır. Koroner cerrahi ile pulmoner rezeksiyon operasyonunun birlikte yapılması fikri birincil olarak cerrahi branşların ilgi alanına girse de tek başlarına bile anestezi açısından dikkatli bir değerlendirme gerektiren, mortalite ve morbiditesi yüksek bu iki hastalığın cerrahisi anestezi uzmanları bu ekibin en önemli üyesi haline getirmektedir. Kombine torasik ve kardiyak cerrahiye gidecek hastaların anestezi yönetimi ile ilgili literatürdeki bilgiler, olgu sunumlarından oluşmaktadır [3,4].

Bu olgu sunumundaki amacımız koroner arter bay-pas greftleme (KABG) operasyonu uygulanmasına karar verilen hastada tesadüfen saptanan akciğer kitlesine eş zamanlı cerrahi sırasındaki anestezi yönetimini sunmaktır.

## Olgu Sunumu

Nefes darlığı şikâyeti ile kardiyoloji kliniğine başvuran 89 yaşındaki erkek hastanın EKG'sinde T dalga değişiklikleri görüldü. Yapılan anjiyografide sağ ana koroner arterde %100, sol ana koroner arterde DI sonrası %90, DII hizasında ise %100, sirkumfleks arterde osteal %60, OM1 öncesi %80, OM2 hizasında %90, OM2'de ise %80 darlık tespit edildi. Çoklu bay-pas operasyonu yapılmasına karar verilen hastanın preoperatif hazırlık döneminde çekilen akciğer filminde sağ akciğerde kitle lezyonu görüldü. Tomografisinde ise bu lezyonun, sağ akciğer orta loba yerleşmiş 44×29×24 mm boyutunda solid bir kitle olduğu saptandı. Hastanın yapılan solunum fonksiyon testinde FVC'nin %97, FEV1'in %88, FEV1/FVC'nin ise %69 olduğu görüldü. Bronkoskopik inceleme yapılmayan hastaya kalp-damar cerrahisi ile birlikte göğüs cerrahisi tarafından ortaklaşa aynı seansta çoklu bay-pası takiben sağ orta lobektomi yapılmasına karar verildi. Premedikasyon amacıyla IV (intravenöz) 2 mg midazolam uygulanan hastaya ameliyat salonunda non-invazif kan basıncı, 5 kanallı elektrokardiyografi, periferik oksijen satürasyonu (SpO<sub>2</sub>), nöromusküler ve serebral puls-oksimetere monitörizasyonunu takiben lokal anestezi altında radial arter kanülasyonu yapılarak invazif kan basıncı monitörizasyonuna başlandı. 3 dk. %100 O<sub>2</sub> ile pre-oksijenizasyonun ardından 1 mg/kg propofol, 1 µg/kg fentanil ile anestezi induksiyonu ve 0,1 mg/kg vekuonyum ile kas gevşemesi sağlandıktan sonra hasta 39 numara sol çift lümenli tüp (Rüsch Bronchopart®, Betschdorf/Fransa) ile entübe edildi. Tüpün uygun yerleşimde olduğu hem oskültasyonla hem de bronkoskop ile doğrulandı. Entübasyonu takiben hastaya sağ juguler venden ultrason eşliğinde "sheat kateter" yerleştirildi. Anestezi idamesi FiO<sub>2</sub> 0,5 olacak şekilde O<sub>2</sub>/hava karışımı, sevofluran (MAC %1-2), vekuonyum (0,1 mg/kg/sa) ve fentanil (1-3 µg/kg/sa) ile sağlandı. Hasta kalp-akciğer pompasında iken anestezi idamesi fentanil infüzyonun yanı sıra aralıklı midazolam ve propofol bolusları ile sağlandı. Tidal volüm 8-10 ml/kg, solunum hızı dakikada 12 olacak şekilde volüm kontrollü ventilasyona başlandı. Tek akciğer ventilasyonunda ise tidal volüm 6-8 ml/kg, solunum hızı dakikada 18 olacak şekilde ayarlandı. TAV sırasında %100 oksijenle başlanıp hedef SpO<sub>2</sub> değeri %

92-98 olacak şekilde FiO<sub>2</sub> ayarlandı. ETCO<sub>2</sub> düzeyi 35-45 mmHg olacak şekilde ventilasyona devam edildi.

Heparinizasyon için başlangıçta 400 IU/kg ve idamede ise aktive pıhtılaşma zamanı 400 saniyenin üzerinde olacak şekilde heparin uygulandı. Kardiyoplejik olarak St. Thomas solüsyonu (Plegisol, Hospira Inc. North Chicago, IL, USA) ve aralıklı soğuk kan kardiyoplejisi kullanıldı. Non-pulsatil pompa akımı 2,4 l/dakika/m<sup>2</sup> ve perfüzyon basıncı 60-80 mmHg olarak idame ettirildi.

Median sternotomiye takiben safen ven grefti hazırlandı ve baypas için sadece safen greft kullanıldı, LİMA (sol internal mammarian arter) diseksiyonu yapılmadı. 89 dakika aortik krosklemp süresi ve 142 dakikalık KABG işlemi sonrasında uygulanan heparinin 1,3 katı dozunda (380 mg) protamin ile nötralizasyon sağlandıktan sonra hasta kalp akciğer pompasından ayrıldı. Takiben hemodinamik açıdan stabil olan hastanın lobektomi işlemine başlandı. KABG işlemi süresince 30-32 C° hipotermi uygulanan hasta lobektomi sırasında ise normotermik olarak takip edildi. Pulmoner rezeksiyon sonrası drenaj amacıyla iki adet göğüs tüpü yerleştirildi ve insizyon kapatıldı. Ameliyat süresince 2Ü eritrosit süspansiyonu ve 2Ü taze donmuş plazma transfüzyonu yapıldı. Hasta, operasyon bitiminde çift lümenli tüp tek lümenli endotrakeal tüp ile değiştirildikten sonra entübe olarak kalp-damar cerrahisi yoğun bakım ünitesine alındı. Postoperatif 6. saatte hastanın uyanık, koopere, hemodinamik olarak stabil (vücut ısısı > 36 C°, FiO<sub>2</sub> 0,4 iken arteriyel kan gazında pH > 7,35, PaO<sub>2</sub> > 75 mmHg, PaCO<sub>2</sub> \* 45 mmHg), ve kanama bulgularının olmaması üzerine sorunsuz bir şekilde ekstübe edildi. Çıkarılan sağ orta lobun patoloji sonucunda kitle lezyonun skuamöz hücreli karsinom olduğu rapor edildi. Postoperatif dönemde kanama, atelaktazi gibi komplikasyon görülmeyen hasta 10. günde taburcu edildi.

## Tartışma

Genellikle koroner arter hastalığı olan akciğer tümörlü hastalarda en güvenilir cerrahi yaklaşım KABG operasyonu ile birlikte evrelemeyi takiben ikinci bir seansta ise pulmoner rezeksiyon yapılmasıdır [5]. Akciğer rezeksiyonunun ertelenmesi ikinci bir operasyonun getirdiği maliyet artışının yanı sıra, metastaz riskini arttırarak mortalitenin artmasına neden olmaktadır. Bu nedenle KABG ile birlikte pulmoner rezeksiyonun aynı seansta yapılması bir alternatif olarak ortaya çıkmıştır [6,7].

Son zamanlarda, kanserli hastalarda off-pump koroner cerrahi kardiyopulmoner baypasın immünoşüpresif ve trombositler üzerine olan negatif etkilerinden sakınmak için artan sıklıkla kullanılan ve popüler bir teknik haline gelmiştir [2]. Off-pump cerrahi kardiyopulmoner baypasın neden olduğu fizyolojik stresi önler, postoperatif kanama riskini ve transfüzyon ihtiyacını azaltarak yoğun bakımda ve hastanede kalma süresi kısaltır. Hastamız yaşlı olduğu ve çok sayıda anastomoz yapılacağı için off-pump cerrahi düşünülmüdü.

Uzun kardiyak cerrahilerde yüksek miktarda opioid kullanımı postoperatif solunumsal komplikasyonlara yol açabilmektedir. Özellikle koroner cerrahi ile birlikte pulmoner kapasitenin azaltıldığı rezeksiyon cerrahilerinde bu durum mortalite ve morbiditeyi olumsuz olarak etkiler. Opioid tüketimini azaltmak ve erken ekstübasyona imkan sağlayarak yoğun bakımda kalış sürelerini kısaltmak için kardiyak anestezi yönetiminde "Fast-Track" yön-

temi kullanılmaktadır. Hastamız, "Fast-Track" kardiyak anestezi yaklaşımı ile hem intraoperatif stabil bir hemodinami sağlandı hem de erken dönemde her hangi bir komplikasyon ile karşılaşmadan ekstübe edildi.

Rutin kardiyak cerrahi öncesinde tüm hastaların karotid stenozu açısından taranması bay-pas sırasında beyin perfüzyonun idamesi açısından önemlidir. Ayrıca özellikle yaşlı hastalarda ateroskleroz plaklarının varlığının ortaya konması da anestezi girişimleri açısından ayrı bir öneme sahiptir. Hastanın preoperatif yapılan karotis dopler ultrasonunda herhangi bir darlık ve ateroskleroz plaklarına rastlanmamasına rağmen santral venöz kateterizasyon işlemi ultrason eşliğinde gerçekleştirildi ve intraoperatif devamlı serebral oksijen satürasyonu monitörizasyonu yapıldı. Böylelikle özellikle tek akciğer ventilasyonu sırasında beyin oksijenlenmesi takip edilmiş oldu.

Özellikle kardiyopulmoner bay-pas kullanılarak yapılan kombine kardiyak ve torakal cerrahilerde en önemli sorunlardan biriside kanamadır. Ekstrakorporeal dolaşımın trombosit fonksiyonları üzerine olumsuz etkilerinin yanı sıra uzamış cerrahi de bunun en önemli nedenidir. Bu tür ameliyatlarda anestezi uzmanlarının göz önünde bulundurması gereken konu masif transfüzyona karşı hazırlıklı olmaktır. Kliniğimizde, kanama beklentisinin yüksek olduğu bu tür hastalarda iki büyük (en az 16G) periferik damar yolunun yanı sıra mutlaka "sheath" kateter yerleştirilir. Ayrıca masif transfüzyon yapılabileceğine ilişkin kan bankasına haber verilerek gerekli kan grubuna ait kan ürünlerinin hazırlanması sağlanır.

Cerrahi işlemlerden önce yapılan preoperatif değerlendirmeler hastaların mevcut durumunu ortaya koymanın yanı sıra bizim olgumuzda olduğu gibi rastlantısal olarak ikincil hastalıkların da ortaya çıkarılmasında önemli rol oynamaktadır. Özellikle cerrahi geçirecek hastalarda ve risk gruplarında iyi bir preoperatif değerlendirme ve yakın intraoperatif takip perioperatif dönemin sorunsuz bir şekilde yönetilmesini sağlayacaktır.

Sonuçta, kombine kardiyak-torasik cerrahi ile ilgili tam bir fikir birliği yoktur. Benzer şekilde bu hastalardaki anestezi yönetimi ile ilgili de olgu sunumları ve klinik deneyimler dışında yapılmış geniş çaplı klinik çalışma bulunmamaktadır. Bu nedenle kardiyak-torasik cerrahinin hem kardiyak hem de torasik cerrahi konusunda tecrübeli merkezlerde ve seçilmiş vakalarda yapılması uygun olacaktır.

#### **Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı**

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

#### **Kaynaklar**

1. Bugan B, Celik T. Koroner Arter Hastalığı Risk Faktörleri. J Clin Anal Med 2014;5(2):159-63.
2. Dyszkiewicz W, Jemielity M, Piwkowski C, Kasprzyk M, Perek B, Gasiorowski L, Kaczmarek E. The early and late results of combined off-pump coronary artery bypass grafting and pulmonary resection in patients with concomitant lung cancer and unstable coronary heart disease. Eur J Cardiothorac Surg 2008;34(3):531-5.
3. Lennon PF, Hartigan PM, Friedberg JS. Case 5--1998. Clinical management of patients undergoing concurrent cardiac surgery and pulmonary resection. J Cardiothorac Vasc Anesth 1998;12(5):587-90.
4. Shibusawa M, Toraiwa S, Saitoh S. Anesthetic management of concomitant off-pump coronary artery bypass grafting, pulmonary resection, and mastectomy. Masui 2006;55(2):212-4.
5. Thomas P, Giudicelli R, Guillen JC, Fuentes P. Is lung cancer surgery justified in patients with coronary artery disease? Eur J Cardiothorac Surg 1994;8(6):287-91; discussion 92.
6. Morishita K, Kawaharada N, Watanabe T, Koshima R, Fujisawa Y, Watanabe A, Kusajima K, Koshino T, Fukada J, Abe T. Simultaneous cardiac operati-

ons with pulmonary resection for lung carcinoma. Jpn J Thorac Cardiovasc Surg 2001;49(12):685-9.

7. Prokakis C, Koletsis E, Apostolakis E, Panagopoulos N, Charoulis N, Velissaris D, Filos K, Dougenis D. Combined heart surgery and lung tumor resection. Med Sci Monit 2008;14(3):CS17-21.

#### **How to cite this article:**

Özkan G, İnce ME, Doğanç S, Yıldırım V. Anesthesia Management in Simultaneously Coronary Artery By-Pass Grafting and Lobectomy Surgery: Case Report. J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 481-3.



## Headache Could Be Finding of Sinus Vein Thrombosis in Behçet's Patients

### Behçet Hastalarında Baş Ağrısı Sinüs Ven Trombozu Bulgusu Olabilir

Behçet Hastalığı ve Baş Ağrısı / Behçet's Disease and Headache

Halil Murat Şen, Adile Özkan, Çağdaş Balcı, Handan Işın Özışık Karaman  
Nöroloji AD, Çanakkale Onsekiz Mart Üniversitesi Tıp Fakültesi, Çanakkale, Türkiye

#### Özet

Behçet hastalığı (BH) dünyada en sık Türkiye' de izlenir ve ismini Türk dermatolog Hulusi Behçet' den alır. Genital ülserler, oral ülserler ve üveit triadı hastalığın temel bulgularıdır. BH' de nörolojik tutulum sıklıkla hastalık başlangıcından ortalama 5 yıl sonra olsa da hastalığın ilk ortaya çıkışı nörolojik bulgularla da olabilir. Sinüs ven trombozu (SVT) BH' de izlenebilecek nörolojik tutulumlardır. Ancak SVT tanısının konması zordur ve özürlülük yapabilen veya mortal olabilen bir durumdur. Bizim vakamız da SVT tanısı konulan ve yaklaşık 5 senedir BH' si olan 24 yaşında kadın hastaydı. Bizim vakamızda hastanın çok sık sağlık kuruluşu başvurusuna rağmen SVT tanısı, semptomların başlangıcından itibaren 15 gün gecikmişti. BH SVT' ye neden olabilir ve SVT özürlülük veya mortalite nedenidir ancak bizim vakamızda olduğu gibi çok geç tanı alabilmektedir. Bu nedenle hastalık hakkındaki farkındalığı artırmak amaçlı bu vakayı sunmayı uygun gördük.

#### Anahtar Kelimeler

Behçet Hastalığı; Nörobeçet Hastalığı; Sinüs Ven Trombozu

#### Abstract

Globally Behçet's disease (BD) is most frequently seen in Turkey and takes its name from the Turkish dermatologist Hulusi Behçet. Basic findings of the disease are the triad of genital ulcers, oral ulcers and uveitis. Neurological involvement in BD appears an average of 5 years after the beginning of disease, or the first appearance of the disease may be neurological findings. Sinus vein thrombosis (SVT) is among neurological involvements observed in BD. However diagnosis of SVT is difficult and it is a situation that may cause disability or mortality. Our case was a 24-year old female patient with diagnosed SVT who had a diagnosis of BD from 5 years. In spite of the patient frequently applying to health services, SVT diagnosis was delayed until 15 days after the initial symptoms. BD can cause SVT and SVT may cause disability or mortality but SVT may be diagnosed late, just as in our case. Therefore we present this case to increase awareness of this disease.

#### Keywords

Behçet's Disease; Neuro-Behçet's Disease; Sinus Vein Thrombosis

DOI: 10.4328/JCAM.3302

Received: 08.02.2015 Accepted: 04.03.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 484-6

Corresponding Author: Halil Murat Şen, Nöroloji Ana Bilim Dalı, Çanakkale Onsekiz Mart Üniversitesi Tıp Fakültesi, Çanakkale, Türkiye.

T.: +90 2862183738 GSM: +905326766455 F.: +90 2862180018 E-Mail: hmuratsen@gmail.com



## Giriş

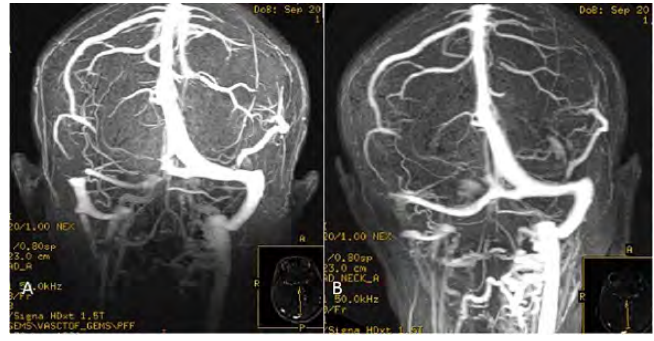
Behçet hastalığında (BH) genital ülserler, oral ülserler ve üveit triadı hala tanıda önemini korumaktadır. Fakat inflamatuvar lezyonlar vücutta cilt, vasküler, eklem, gastrointestinal sistem, renal, kardiyopulmoner sistem ve sinir sistemi gibi hemen hemen tüm dokuları tutabilir [1]. BH tüm dünyada ortaya çıkabilse de Doğu Akdeniz ve Doğu Asya popülasyonlarında sıklığı daha fazladır. En yüksek prevalans ise Türkiye'de rapor edilmiştir (20-421/ 100 000) [2]. BH' de nörolojik tutulum nörobeçet hastalığı (NBH) olarak isimlendirilir. NBH sıklığı erkeklerde daha fazladır ve genellikle BH başladıktan 5 yıl sonra ortaya çıkar ancak bazen hastalığın ilk prezentasyonu nörolojik bulgularla olabilir [3]. BH' de santral sinir sistemi (SSS) tutulumu parankimal ve extraparakimal olarak 2 ana gruba ayrılır. Serebral venöz tromboz (SVT) extraparakimal tutulumlardandır. SVT, NBH' nin yaklaşık % 18' lik kısmını oluşturur ve göreceli olarak parankimal tutulumuna göre daha iyi prognozlidir [4]. SVT özüllülük veya ölümlle sonuçlanabilen, ciddi bir nörolojik bozukluktur. Başlangıç bulguları izole baş ağrısı veya görme sorunlarından hemiparezi, komaya kadar değişken olabilmektedir [5]. SVT' nin başlangıç bulgularının çok çeşitli olabilmesi ve sıklığının düşük olması nedeni ile hastalığın doğru tanı alması çok uzun süre alabilmektedir [6]. Bizim vakamız BH' nin bir SSS tutulumu olan SVT idi. SVT ölümlle sonuçlanabilecek kadar ciddi bir hastalıktır fakat hastalık başlangıcı ile tanı alması arasındaki süre sıklıkla uzundur. Bu nedenlerden dolayı bu vakayı SVT hakkındaki farkındalığı artırmak amaçlı sunmayı uygun gördük.

## Olgu Sunumu

Daha önce baş ağrısı yakınması olmayan 24 yaşında kadın hasta yaklaşık 15 gün önce başlayan ve aralıksız devam eden şiddetli baş ağrısı ile kliniğimize başvurdu. Ağrı sol kafa yarısına lokalize ve hastanın günlük yaşam aktivitelerini engelleyecek şiddetliydi. Hastanemize başvurana kadar hasta her gün, zaman zaman günde birkaç kez olacak şekilde çeşitli sağlık kuruluşlarına başvurmuştu. Bu başvurularının sonucunda sıklıkla migren tanısı almıştı. Özgeçmişinde yaklaşık 5 yıldır BH olan hasta kliniğimize SVT ön tanısı ile yatırıldı. Hastanın solunum, nabız, ateş, tansiyon gibi vital bulguları normal sınırlardaydı. Fizik muayenesi normaldi. Nörolojik muayenesinde ise patolojik olan bir bulgu saptanmadı. Kranial manyetik rezonans (MR) görüntüleme ve MR venografi (MRV) tetkikleri yapıldı. Kranial MR' da beyinde parankimal bir lezyon saptanmadı, MRV' de ise sol transvers sinüs trombozu saptandı (Şekil 1). Hastaya antikoagülan tedavi başlandı. Hastada kortikosteroid (KS) kullanımına bağlı femur başı avasküler nekrozu olduğu için KS tedavisi verilemedi. Hasta diğer immünespresif tedavilerin kullanımını da riskleri nedeni ile kabul etmedi. Hastanın ilerleyen dönemde hafif baş ağrısı şikayeti dışında ek sorunu olmadı.

## Tartışma

Behçet hastalığında ilk ortaya çıkan klinik bulgular nörolojik olabilir ancak genellikle hastalığın başlangıcından ortalama 5 yıl sonra nörolojik tutulum olur [3]. Nörolojik tutulumun majör hedefi ise SSS' dir. SSS tutulumu parankimal ve non parankimal olarak ikiye ayrılır. Parankimal tutulumda meningoensefalit, nonparankimal tutulumda ise büyük venlerin trombozu ve ara sıra arteriyel oklüzyon oluşur [4]. Bizim vakamızda da hastalık



Şekil 1. İlk MRV' de sol transvers sinüsde kontrast dolumu görülmezken (A), iki ay sonra tekrarlanan MRV' de sol transvers sinüsde kontrastlanma izlendi (B).

başlangıcından yaklaşık 5 yıl sonra SVT tipinde nörolojik tutulum olmuştu. SVT nadir izlenen bir durumdur ve izole baş ağrısından komaya kadar geniş spektrumlu bir prezentasyonu vardır. Bu nedenlerden dolayı hekim yüksek şüpheli olmadıkça tanısının konabilmesi hayli zordur [5].

Baş ağrısı, SVT' de en sık görülen semptomdur ve hastaların %89' unda izlenir, % 80 hastada ilk semptomdur, bazı hastalarda da tek semptom baş ağrısıdır [7]. SVT hastalarının %37,8' inde semptomların başlangıcından 48 saat sonra, %55,5' inde 48 saat ile 30 gün arasında, %7,2' sinde ise 30 günden fazla sürede tanı konabilir. SVT' de tanı için MR ve MRV görüntüleme yöntemleri genellikle yeterlidir. Ancak bazen MRV tanı için yetersiz kalabilir ve % 12 hastada tanı için intraarterial anjiyografi yapılması gerekir. %1 hasta ise ancak otopsi ile tanı alır [6]. Bazı hastalarda intrakranial hipertansiyon semptom ve bulguları mevcuttur fakat kranial görüntülemelerde SVT bulguları yoktur. Bu hastalar idiyopatik intrakranial hipertansiyon olarak tanımlanır. Ancak bu hastalar günümüz görüntüleme tekniklerinin ispatlayamadığı SVT olabilir [4]. Hastane yatış süresince mortalite oranı % 5,6' dır, takip eden periyotta ise % 9,4' dür. Yalnızca hafif fonksiyonel veya kognitif defisiti olan vakaların % 88' inde tamamen veya kısmi düzelmeye gözlenir [5]. Bizim hastamızda da başlangıç semptomu ve tek semptomu baş ağrısı idi. Tanı alması ise semptomların başlangıcından sonra çok sık sağlık kuruluşuna başvurusuna rağmen 15 gün gecikmişti. Aslında hastanın özgeçmişinde bir baş ağrısı yakınması yoktu. Aynı zamanda baş ağrısı çok şiddetli ve çok sık sağlık kuruluşuna başvurusuna neden olmaktadır. Ancak BH' nin dünyada en sık izlendiği bölge Türkiye olmasına rağmen, hastanın baş ağrısı semptomunun BH' nin bir SSS komplikasyonu olabileceğinden şüphelenilmemişti.

Tedavide antikoagülanlar, KS' ler ve diğer immünespresif tedaviler önerilir. Bazı nörologlar tedavide antikoagülan kullanmaz ve KS ile diğer immünespresif tedavileri kullanırlar. Bunun mantığı ise primer patoloji damar duvarındaki inflamatuvar süreçsin trombogenezisi indüklemesi olduğu içindir [8]. Aynı zamanda BH' de pulmoner arter anevrizması görülebildiğinden antikoagülan kullanımı fatal kanama riskini artırdığı için antikoagülan tedaviden kaçınırlar. Ancak BH' si olan derin ven trombozlarına arteriyel anevrizmaları olduğu halde ( n=44 [% 14,9]), bunların 8 tanesi pulmoner arter anevrizmasıydı, antikoagülan tedavi uygulanmış. Antikoagülan tedaviye tolerans oldukça tatmin edici saptanmış ve hastaların sadece % 2' sinde hemorajik semptomlar gözlenmiş [8]. Bu nedenle tedavide antikoagülan tedavi kullanımı önerilmektedir. Biz vakamızda antikoagülan tedavi kullandık ve herhangi bir hemorajik komplikasyona rastlamadık.

Hastanın daha önce KS kullanımına bağlı olan femur başı avasküler nekroz öyküsü vardı. Hastada bu nedenle KS kullanmak istemedik ve hasta riskleri nedeni ile diğer immünespresif tedavileri de kesinlikle ret etti. Ancak yapılan kontrollerde klinik bulgular düzeldi, tekrarlayan SVT olmadı ve hemorajik komplikasyon gelişmedi.

BH dünyanın farklı bölgelerinde farklı sıklıkta izlenmektedir. Dünyada en sık olduğu bölge ise Türkiye'dir [2]. BH dünyada en sık Türkiye'de izlenmesine karşın bizim vakamızda olduğu gibi hastalık hakkındaki farkındalık düşüktür. Oysa BH sadece birkaç sistemi etkileyen benign bir hastalık olmayıp vücutta pek çok sistemi tutar ve özürülük ve ölüm gibi kötü sonuçlara neden olabilir. Özellikle BH' de hastanın daha önce tecrübe etmediği düzeyde baş ağrıları olduğunda nörolojik tutulum yönünde yüksek şüphede duyulmalıdır. BH' de ortaya çıkan nörolojik semptom ve bulgularda yüksek şüpheli davranma bilinci hekimler tarafından yeterince benimsenmelidir.

### **Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı**

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

### **Kaynaklar**

1. Sakane T, Takeno M, Suzuki N, Inaba G. Behçet's disease. N Engl J Med 1999;341(17):1284-91.
2. Seyahi E, Yurdakul S. Behçet's syndrome and thrombosis. Mediterr J Hematol Infect 2011;3(1):e2011026.
3. Akman-Demir G, Serdaroglu P, Taşçı B, Neuro-Behçet Study Group. Clinical patterns of neurological involvement in Behçet's disease: evaluation of 200 patients. Brain 1999;122(11):2171-81.
4. Al-Araji A, Kidd DP. Neuro-Behçet's disease: epidemiology, clinical characteristics, and management. Lancet Neurol 2009;8(2):192-204.
5. Thorell SE, Parry-Jones AR, Punter M, Hurford R, Thachil J. Cerebral venous thrombosis-A primer for the haematologist. Blood Rev. Forthcoming 2015;29(1):45-50
6. Ferro JM, Canhao P, Stam J, BousserMG, Barinagarrementeria F, Investigators I. Prognosis of cerebral vein and dural sinus thrombosis: results of the International Study on Cerebral Vein and Dural Sinus Thrombosis (ISCVT). Stroke 2004;35(3):664-70.
7. Cumurciuc R, Crassard I, Sarov M, Valade D, Bousser MG. Headache as the only neurological sign of cerebral venous thrombosis: a series of 17 cases. J Neurol Neurosurg Psychiatry 2005;76(8):1084-7.
8. Desbois AC, Wechsler B, Resche-Rigon M, Piette JC, Huong Dle T, Amoura Z et al. Immunosuppressants reduce venous thrombosis relapse in Behçet's disease. Arthritis Rheum 2012;64(8):2753-60.

### **How to cite this article:**

Şen HM, Özkan A, Balcı Ç, Karaman HIÖ. Headache Could Be a Finding of Mortal Neurological Involvement in Behçet Patients. J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 484-6.



## Iliac Artery and Vein Injury Without Pelvic Fracture Due To Blunt Trauma: A Rare Case

### Künt Travmaya Bağlı Pelvis Kırığı Olmaksızın İliak Arter ve Ven Yaralanması: Nadir Bir Vaka

İliak Damar Yaralanması / Iliac Vascular Injury

Mustafa Cüneyt Çiçek<sup>1</sup>, Ömer Faruk Çiçek<sup>1</sup>, Kanber Karakurt<sup>2</sup>, Barış Çankaya<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Department of Cardiovascular Surgery, Türkiye Yüksek İhtisas Educational and Research Hospital, Ankara,

<sup>2</sup>Department of Emergency Medicine, Nevşehir State Hospital, Nevşehir,

<sup>3</sup>Department of Anesthesiology, Nevşehir State Hospital, Nevşehir, Turkey

#### Özet

İliak damar yaralanmaları yüksek morbidite ve mortalite ile ilişkilidir. Penetran abdominal ve pelvik vasküler yaralanmalar künt travmalara göre daha siktir. Künt pelvik damar yaralanmalarına çoğunlukla pelvis kırığı eşlik eder. 23 yaşında erkek hasta motor kazası sonrası acil servisimize kabul edildi. Şok tablosunda olan hastada sol femur şavt kırığı vardı ve yapılan Doppler ultrasonografide arteriyel ve venöz akım izlenmedi. Hasta acil olarak operasyona alındı. Sol ana iliak arter ve ven normaldi fakat eksternal iliak ven iki yerinden lasereydi, sol external iliak arterin ise bir yerinde damar duvar bütünlüğü bozulmuştu. Sunulan olguda künt travmaya bağlı pelvis kırığı olmaksızın iliak arter ve ven yaralanmasının klinik prezentasyonu ve travmatik retroperitoneal hematoma yönetimi tartışılmaktadır.

#### Anahtar Kelimeler

İliak Arter; İliak Ven; Vasküler Travma; Künt Travma

#### Abstract

Iliac vascular injuries have high morbidity and mortality rates. Penetrant abdominal and pelvic vascular injuries are more common compared to blunt traumas. Pelvic vascular injuries associated with blunt trauma are quite likely to occur in accompaniment with pelvic fracture. A 23 year old male patient was admitted to the emergency room due to a motorcycle accident. Shock picture was prevalent in the patient. Shaft fracture was present in left femur and flow was not detected in arterial and venous colour Doppler ultrasonography. Patient underwent emergency surgery. Left main iliak artery and vein were normal, however, external iliak vein was lacerated in two spots, and blood vessel wall integrity was damaged in one part of left external iliak artery. Clinical presentation and traumatic retroperitoneal hematoma management of iliak artery and venous injuries due to blunt trauma without pelvic fracture are discussed in the presented case.

#### Keywords

Iliac Artery; Iliac Vein; Vascular Trauma; Blunt Injury

DOI: 10.4328/JCAM.3319

Received: 16.02.2015 Accepted: 04.03.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 487-9

Corresponding Author: Ömer Faruk Çiçek, Department of Cardiovascular Surgery, Türkiye Yüksek İhtisas Educational and Research Hospital, 06100, Ankara, Turkey. GSM: +905057721661 E-Mail: farux@hotmail.com

## Introduction

Iliac vascular injuries associated with abdominal and pelvic traumas may cause severe outcomes. Mortality rates in iliac vascular injuries are between 30-50% [1]. The most significant factors affecting mortality are blood loss and related shock, accompanying injuries, and the time between the injury and operation [2,3]. While failure to perform sufficient compression to the bleeding vein in preoperative period, and isolation and difficulty of control resulting from the retroperitoneal course of iliac veins along with hematoma in intraoperative period render the bleeding control problematic and make the shock picture more severe [4]. Abdominal and pelvic vascular injuries may occur as blunt, penetrant, and iatrogenic. In literature, penetrant abdominal and pelvic vascular injuries are more common compared to blunt traumas [5]. Pelvic vascular injuries associated with blunt trauma are quite likely to occur in accompaniment with pelvic fracture [6]. Clinical presentation and traumatic retroperitoneal hematoma management of iliac artery and venous injuries without blunt trauma-associated pelvic fracture are discussed in the presented case.

## Case Report

A 23-year-old male patient was admitted to the emergency room of our hospital from an epicentre 6 hours after a motorcycle accident. Blood pressure of the patient was 60/40 mmHg, pulse was 140 beats per minute and respiration was tachypneic. Shock picture was prevalent in the patient. Physical examination revealed diameter increase and ecchymosis in the left thigh without sensory or motor deficits. The same extremity was slightly cold and femoral pulse was absent. However, there was no clinically significant leg compartment syndrome. Abdominal examination was normal. When checked the laboratory results, hemoglobin: 6.5 g/dl, hematocrit: 19.4. Transthoracic echocardiography revealed no evidence of cardiac tamponade and cardiac or great vessel injuries. No fractures were observed in chest, spinal, and pelvic plain radiographs. Shaft fracture was present in left femur. Flow was not detected in arterial and venous colour Doppler ultrasonography conducted in emergency situations. Solid organ traumas were not detected in tomography. However, hematoma was present in retroperitoneal region (Figure 1).



Figure 1. Admission computerized tomography scan shows perivascular hematoma (arrow).

Patient underwent cardiac arrest in early preoperative period, but patient was resuscitated effectively and then taken to operation room. Undergoing a shock picture, patient was planned

to conduct retroperitoneal hematoma exploration carried out under emergency conditions without further tests. Median laparotomy was performed under the umbilicus. No findings were established in favour of hematoma or solid organ damage. When the incision was extended to the left side, diffuse hematoma was observed in retroperitoneum. Left main iliac artery and vein were normal, however, external iliac vein was lacerated in two spots, and blood vessel wall integrity was damaged in one part of left external iliac artery (Figure 2). Lacerations in

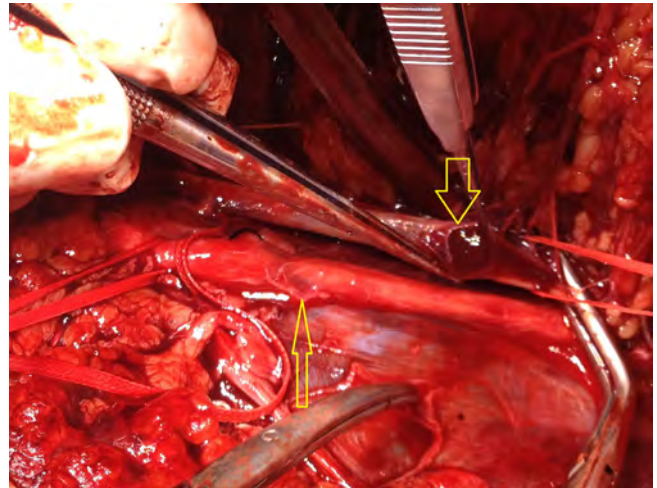


Figure . Intraoperative photograph shows the arterial hematoma (thin arrow) and venous laceration (thicker arrow).

left external iliac vein were found in two spots with a longitudinal course of 1cm consecutively and 0.5 cm in length. In one spot of left external iliac artery, blood vessel wall structure was observed to damage in a segment of around 1cm and blood was extravasating from this segment. When incision was extended to the femoral region, femoral artery and vein were observed to be intact. Bleeding was brought under control with the help of vascular clamps placed on proximal and distal of both iliac arteries. The segment of 1cm where iliac artery was lacerated was excised and end-to-end anastomosis was conducted. Then, defect in iliac vein was repaired by continuous suture technique. The operation was uneventful despite the urgent need for intervention. Following bleeding control, anatomic layers were closed accordingly and the patient was then taken to intensive care unit. Flow in femoral artery and vein was observed in bedside colour Doppler ultrasonography and vital signs were normal. However, the patient went into cardiac arrest at the postoperative first hour and died despite resuscitation.

## Discussion

Mortality and morbidity of iliac vascular injuries are quite high in spite of advanced surgical techniques and developments in intensive care today. Iliac artery injuries generally occur due to penetrating injuries [5]. Iliac artery and vein injuries were demonstrated in many series along with pelvic fracture [6]. In this sense, the presented case was a rare condition in which iliac artery and vein got injured together due to blunt trauma but pelvic fracture was non-existent.

Approach to trauma-related retroperitoneal hematoma is still controversial as it was in the past. Retroperitoneal hematoma due to blunt trauma generally occurs in association with pel-

vic fracture [7]. Although mostly in pelvic and presacral veins, the source of haemorrhage can also be in major iliac artery or in branches of veins. In pelvic hematomas due to such traumas, external pelvic fixation, spontaneous tamponade and angiographic embolization approaches may be preferable. Certain exceptions to these conservative approaches were presented in a list by Feliciano. These are pelvic fracture-associated severe blood losses, hematomas through open wounds, suspected or proven major vascular injuries [8].

When the patient in the reported case was evaluated initially at the emergency room, iliac vein or arterial injury was not considered at first since the patient had femoral shaft fracture and associated hematoma in thighs. Therefore, femoral artery and/or venous injury was believed in the foreground as responsible for the current clinical picture. Due to the presence of retroperitoneal hematoma in tomography and the unstable condition of the patient, retroperitoneal exploration was decided without further tests.

While in patients that are clinically suspected to have had arterial injuries arteriography is recommended if haemodynamics is stable, it is contra-indicated in patients that are not stabilized. In such cases, duplex ultrasonography may be useful [9].

Numerous studies suggest that the time from the injury till the operation depending on the degree of major abdominal artery or venous injuries is quite critical and that it leads the factors affecting prognosis [10]. Bearing in mind the commencement of effectively fighting with shock and that diagnosis is made in major vascular injuries intraoperatively following the admittance of patient, it is life-saving to conduct emergency operation and exploration of the injured vessel by surgeon especially in cases with unstable vital signs, and also the restoration of haemostasis and critical blood flow without wasting any time. Emergency surgical reparation is indicated following the diagnosis of major vascular injury. Mostly primary repair is suggested in literature as approaches to vascular injuries [2]. We, too, excised the dissected section of 1 cm of the iliac artery and conducted end-to-end anastomosis in our case. In continuation, we preferred primary restoration of the lesional wall of iliac vein.

There are studies reporting viewpoints on the ligation as an alternative to the reparation of bleeding artery or vein. Surgeon needs to bear in mind all the risks including ischemia that may develop when preferring ligation. All infrarenal veins can be ligated. Some studies reported that peripheral edema was observed quite low following the ligation of vena cava on infrarenal level [11,12]. In a study by Dubose et al. [13] conducted on 61 cases, ischemic complications were not observed among unstable patients with pelvic fracture and bleeding who survived following bilateral ligation and pelvic packing or internal iliac artery embolization practices.

To sum up, iliac vascular injuries without pelvic fracture due to blunt trauma are rare but high-mortality conditions. In such rare injuries, surgeons should expect quite remarkable difficulties during diagnosis, in surgical approaches, and in postoperative follow-ups. Especially in diagnosis, vascular or trauma surgeons need to be a little bit sceptical while evaluating the patient and to keep in mind the possibility of iliac vascular injuries at all times.

### Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

### References

1. Asensio JA, Petrone P, Roldán G, Kuncir E, Rowe VL, Chan L, et al. Analysis of 185 iliac vessel injuries: risk factors and predictors of outcome. *Arch Surg* 2003;138(11):1187-93.
2. Mullins RJ, Huckfeldt R, Trunkey DD. Abdominal vascular injuries. *Surg Clin North Am* 1996;76(4):813-32.
3. Bedirli A, Sözüer EM, Şakrak Ö, Yılmaz Z, Kerek M. Major abdominal vascular injuries. *Ulusal Travma Dergisi* 1999;2:116-9.
4. Degiannis E, Velmahos GC, Levy RD, Wouters S, Badicel TV, Saadia R. Penetrating injuries of the iliac arteries: a South African experience. *Surgery* 1996;119(2):146-50.
5. Burch JM, Richardson RJ, Martin RR, Mattox KL. Penetrating iliac vascular injuries: recent experience with 233 consecutive patients. *J Trauma* 1990;30(12):1450-9.
6. Moreno C, Moore EE, Rosenberger A, Cleveland HC. Hemorrhage associated with major pelvic fracture: a multispecialty challenge. *J Trauma* 1986;26(11):987-94.
7. Goins WA, Rodriguez A, Lewis J, Brathwaite CE, James E. Retroperitoneal hematoma after blunt trauma. *Surg Gynecol Obstet* 1992;174(4):281-90.
8. Feliciano DV. Management of traumatic retroperitoneal hematoma. *Ann Surg* 1990;211(2):109-23.
9. McDonald EJ Jr, Goodman PC, Winestock DP. The clinical indications for arteriography in trauma to the extremity. A review of 114 cases. *Radiology* 1975;116(1):45-7.
10. Feliciano DV, Burch JM, Graham JM: Abdominal vascular injury. In Mattox LK, Feliciano DV, Moore EE (eds): *Trauma*. New York: McGraw-Hill, 2000, pp 783-805.
11. Sullivan PS, Dente CJ, Patel S, Carmichael M, Srinivasan JK, Wyrzykowski AD, et al. Outcome of ligation of the inferior vena cava in the modern era. *Am J Surg* 2010;199(4):500-6.
12. Oliver JC, Bekker W, Edu S, Nicol AJ, Navsaria PH. A ten year review of civilian iliac vessel injuries from a single trauma centre. *Eur J Vasc Endovasc Surg* 2012;44(2):199-202
13. DuBose J, Inaba K, Barmparas G, Teixeira PG, Schnüriger B, Talving P, et al. Bilateral internal iliac artery ligation as a damage control approach in massive retroperitoneal bleeding after pelvic fracture. *J Trauma* 2010;69(6):1507-14.

### How to cite this article:

Çiçek MC, Çiçek ÖF, Karakurt K, Çankaya B. Iliac Artery and Vein Injury Without Pelvic Fracture Due To Blunt Trauma: A Rare Case. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 487-9.



## A Rare Case: Isolated Testicular and Epidural Abscess Associated with Brucellosis

### Nadir Bir Olgu: Bruselloza Bağlı İzole Testiküler ve Epidural Apse Birlikteliği

Bruselloza Bağlı Testiküler ve Epidural Apse / Testicular and Epidural Abscess Associated with Brucellosis

Tugce Ozlem Kalayci<sup>1</sup>, Tuna Demirdal<sup>2</sup>, Mehmet Fatih İnci<sup>1</sup>, Melda Apaydin<sup>1</sup>, Mustafa Fazıl Gelal<sup>1</sup>  
<sup>1</sup>Radyoloji Kliniği, <sup>2</sup>Enfeksiyon Hastalıkları Ana Bilim Dalı,  
İzmir Katip Çelebi Üniversitesi, Atatürk Eğitim ve Araştırma Hastanesi, İzmir, Türkiye

Bu çalışma 35.Ulusal Radyoloji Kongresi (11-16 Kasım 2014, Antalya, Türkiye) e-poster olarak sunulmuştur.

#### Özet

Spinal epidural apse ile izole testiküler apse birlikteliği brusellozun oldukça nadir görülen bir komplikasyonudur. Yirmidört yaşındaki erkek hasta, iki aydır devam eden bel ağrısı, gece terlemesi ve sol skrotal ağrı ile kliniğimize başvurdu. Skrotal Doppler incelemede, sol testiste, yoğun içerikli septalı kistik lezyon, izole testiküler apse olarak değerlendirildi. Hastanın lomber MRG incelemesinde spinal epidural ve sağda paraspinal multipl apse odakları tesbit edildi. Epidural ve skrotal apse drenajı ve antibiyoterapi ile hasta tedavi edildi. Brusella enfeksiyonunun endemik olduğu bölgelerde, bel ağrısı ve skrotal ağrı yakınması ile gelen olgularda, spinal ve testiküler apse birlikteliğinin nadir de olsa karşımıza çıkabileceği akılda tutulmalıdır.

#### Anahtar Kelimeler

Bruselloz; Spinal Apse; Testiküler Apse

#### Abstract

Coincidence of isolated testicular abscess and epidural-paravertebral abscess is a rare complication of brucellosis. A 24-year-old male patient was admitted to our clinic with 2 months ongoing back pain, night sweats and left scrotal pain. Scrotal Doppler examination, left testis, dense content septal cystic lesion with dense content in the left testis was considered to isolated testicular abscess in scrotal Doppler examination. Multiple spinal epidural and right paraspinal abscess were detected in the spinal magnetic resonance imaging. The patient was treated with drainage of abscess and oral antibiotics. The rare combination of spinal epidural and testicular abscess should be kept in the mind if a patient presented with low back pain and scrotal pain in regions where brucellosis was endemic.

#### Keywords

Brucellosis; Spinal Abscess; Testicular Abscess

DOI: 10.4328/JCAM.3320

Received: 20.02.2015 Accepted: 05.03.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 490-2

Corresponding Author: Özlem Tuğçe Kalaycı, Radyoloji Kliniği, İzmir Katip Çelebi Üniversitesi, Atatürk Eğitim ve Araştırma Hastanesi, 35160, İzmir, Türkiye.

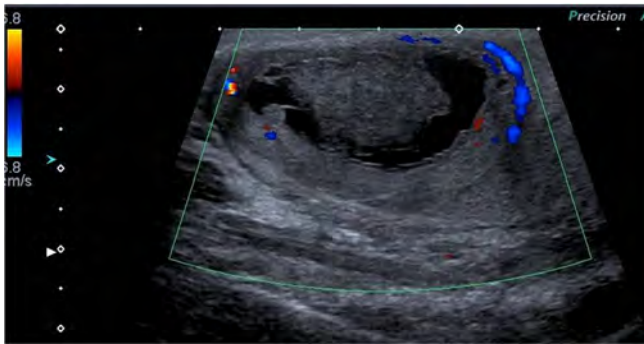
T.: +90 2322454545 F.: +90 2322433208 GSM: +905302270218 E-Mail: doktorozlemtuğce@gmail.com

## Giriş

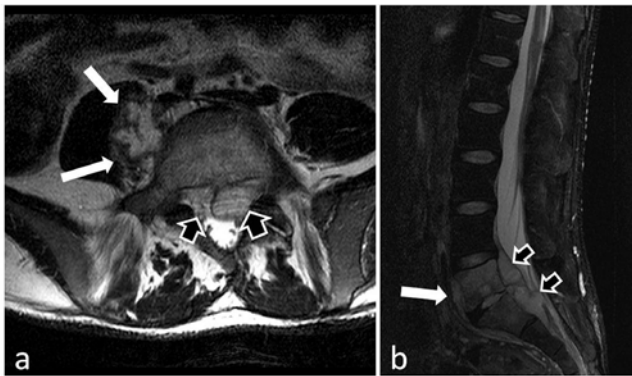
Bruselloz sistemik bir hastalık olup ülkemizde birçok bölgede endemik olarak görülmektedir. Hastalık, enfekte hayvan ile direkt temas, ya da pastörize olmayan enfekte süt ve süt ürünleri ile bulaşmaktadır. Erkeklerde bruselloza bağlı olarak en sık görülen komplikasyon epididimorşit olup testiküler apse daha az görülen bir komplikasyondur [1-4]. Spinal epidural apse ise nadir görülmekte ve tedavi edilmediği takdirde fatal seyredebilmektedir [5,6]. Bruselloza bağlı spinal epidural apse ve izole testiküler apse birlikteliği oldukça seyrek görülmektedir ve bu nedenle klinik ve radyolojik bulguları güncel literatür eşliğinde sunulmaya değer bulunmuştur.

## Olgu Sunumu

Keçi çiftliğinde çalışan 24 yaşındaki erkek hasta, 2 aydır devam eden bel ağrısı, gece terlemesi ve sol skrotal ağrı ile kliniğimize başvurdu. Hastada ateş 38,5 °C, batın muayanesinde karaciğer ve dalakta büyüme, ayrıca sol skrotumda ödem ve palpasyonda hassasiyet mevcuttu. Diğer sistem muayeneleri doğaldı. Tüm batın ultrasonografisinde hepatosplenomegali tespit edildi. Skrotal Renkli Doppler ultrasonografi (RDUS) inceleme Toshiba Aplio 500 cihazı ile 7-12 MHz prob vasıtasıyla yapıldı. RDUS incelemesinde sol epididim olağandı, ancak sol testiste büyüme ve testis parankimi içerisinde, kalın hipervasküler duvar yapısı bulunan, iç konturları düzensiz, yoğun içerikli septalı kistik lezyon izole testiküler apse lehine değerlendirildi (Resim 1). Lomber manyetik rezonans görüntüleme (MRG), 1.5 T Gyroscan Intera system (Philips, Bothell, WA) cihazı ile elde edildi. Olgunun lomber MRG'sinde periferik kontrastlanan, kistik iç yapıda spinal epidural apse formasyonları ve sağda paraspinal alanda multiloküle apse odakları tespit edildi (Resim 2). Serolojik in-



Resim 1. Bruselloza bağlı testiküler apse. Skrotal Doppler ultrasonografide, sol testiste büyüme ve testis parankimi içerisinde duvar yapısında vaskülarite artışı bulunan, yoğun içerikli septalı kistik lezyon.



Resim 2. Bruselloza bağlı epidural ve paravertebral apse. Lomber manyetik rezonans görüntüleme aksiyel (a) ve sagittal (b) planda elde olunan T2 ağırlıklı sekanslarda L 4-5 düzeyinde spinal epidural yerleşimli (kısık oklar) ve sağ psoas kası medialinde paravertebral alanda (beyaz oklar) yüksek sinyalli apse odakları

celemede Rose-Bengal (+) ve Wright testi 1/320 (+) olarak saptandı, kan kültüründe üreme olmadı. Hastaya epidural ve skrotal abse drenajı yapıldı. Medikal tedavide doksisisiklin + rifampisin (altı hafta) ve streptomisin (3 hafta) kombinasyonu uygulandı.

## Tartışma

Bruselloz, sıklıkla hayvancılıkla uğraşanlarda, kasap ve mezbahalarda çalışanlarda, veteriner ve laborantlarda ve taze peynir yeme öyküsü bulunanlarda görülür. Türkiye'de endemik bir hastalık olup birçok organ sistemini etkileyebilmektedir. Bruselloza bağlı testiküler apse oldukça nadir bir durumdur ve testis kitlesi ile gelen olgularda ayırıcı tanıda mutlaka düşünülmelidir. Ateş, gece terlemesi, iştah ve kilo kaybı, skrotumda ağrı, kızarıklık ve şişliği olan ve serolojisi pozitif ve ultrasonografi-RDUS incelemede testis içerisinde kalın duvarlı, yoğun içerikli kistik kitlesi bulunan olgularda bruselloza bağlı testiküler apse tanısı düşünülmelidir. Apse formasyonu, ultrasonografik incelemede, santrali kistik nekrotik tümör ile benzer görünümü nedeniyle tanıda karmaşaya neden olabilir. Ancak olgunun serolojisinin pozitif, tümör markerlerinin negatif olması nedeniyle malignite tanısından uzaklaşılır [1-4].

Bruselloza bağlı spinal epidural apse tanısız karmaşaya neden olabilen oldukça nadir bir klinik tablodur. Ateş ve sırt ağrısı ile gelen brusellozlu olgularda spinal epidural apse, ayırıcı tanıda mutlaka düşünülmeli ve spinal MRG inceleme yapılmalıdır. Spinal epidural apse tanısında MRG oldukça yüksek doğruluk oranına sahiptir ve ilk inceleme yöntemi olarak önerilmektedir. Epidural apse tanı ve tedavisinde gecikme, apse formasyonunun spinal korda bası yapması neticesinde kalıcı paralizilere yol açabilmekte hatta nörolojik ve vasküler komplikasyonlar nedeniyle ölüme neden olabilmektedir [5,6].

Dünya Sağlık Örgütü 1986 yılında, Brusellozlu erişkinlerin 6 haftalık Doksisisiklin+rifampisin kombinasyonu ile tedavisini önermiştir. Altı hafta doksisisiklin ile 14 gün streptomisin tedavisinin de yaklaşık olarak benzer etkinlikte olduğu bildirilmiştir [2,7]. Sonuç olarak, brusellozun endemik olduğu bölgelerde, ateş, gece terlemesi, halsizlik gibi genel semptomlarla birlikte, bel ağrısı ve skrotal ağrı yakınması eşlik eden olgularda, tedavi edilmediği takdirde ölüm dahil ağır komplikasyonlarla sonuçlanabilen spinal epidural apse ve testiküler apse birlikteliğinin nadir de olsa karşımıza çıkabileceği unutulmamalı, bu klinikle presente olan hastaların tanı/ayırıcı tanısında ultrasonografi ve MRG gibi radyolojik modalitelerin önemli bilgiler sağlayacağı akıld tutulmalıdır.

## Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

## Kaynaklar

1. Turhan V, Acar A, Ates F, Diktas H, Haholu A, Oncul O, et al. Orchiectomy performed in two patients with Brucella orchitis mimicking testicular tumour. West Indian Med J 2013;62:557-60.
2. Demirdal T, Demirtürk N, Demirbaş M. Brusella Orşiti: Aynı Aileden İki Olgu Sunumu. Ankem Derg 2004;18:117-9.
3. Akinci E, Bodur H, Cevik MA, Erbay A, Eren SS, Zıraman I, et al. A complication of brucellosis: epididymoorchitis. Int J Infect Dis 2006;10:171-7.
4. Yemisen M, Karakas E, Ozdemir I, Karakas O. Brucellar testicular abscess: a rare cause of testicular mass. J Infect Chemother 2012;18:760-3.
5. Boyacı A, Boyacı N, Tutoglu A, Dokumacı DS. Spinal epidural abscess in brucellosis. BMJ Case Rep 2013; DOI: 10.1136/bcr-2013-200946.
6. Starakis I, Solomou K, Konstantinou D, Karatza C. Brucellosis presenting as a spi-

nal epidural abscess in a 41-year-old farmer: a case report. *Cases J* 2009;2:7614.  
7. Demirtürk N, Demirdal T, Erben N, Demir S, Asci Z, Kilit TP, et al. Brucellosis: a retrospective evaluation of 99 cases and review of brucellosis treatment. *Trop Doct* 2008;38:59-62.

***How to cite this article:***

Kalayci TO, Demirdal T, İnci MF, Apaydin M, Gelal MF. A Rare Case: Isolated Testicular and Epidural Abscess Associated with Brucellosis. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 490-2.





## Tuberculosis Patients Admitted with High Fever and Hilar Mass

### Yüksek Ateş ve Hiler Kitle ile Başvuran Tüberküloz Olgusu

Kanser Görünümlü Tüberküloz / Cancer Mimicking Tuberculosis

Yusuf Aydemir<sup>1</sup>, Abidin Şehitoğulları<sup>2</sup>, Muzaffer Yılmaz<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Göğüs Hastalıkları ABD, Sakarya Üniversitesi Tıp Fakültesi,

<sup>2</sup>Göğüs Cerrahisi ABD, Sakarya Eğitim Araştırma Hastanesi, Sakarya, Türkiye

TUSAD 36. Ulusal Kongresinde, 15-19 Ekim 2014 tarihinde, İzmir'de elektronik poster olarak sunulmuştur.

#### Özet

Tüberküloz, farklı klinik ve radyolojik özelliklerle ortaya çıkabilir. Bu nedenle ayırıcı tanıda zaman zaman güçlük çekilebilmektedir. Uyuşturucu madde kullanım öyküsü olan 22 yaşında erkek hasta, yüksek ateş ile başvurduğu intaniye kliniğince nötropenik olması üzerine yatırılmıştı. Ampirik antibiyotik tedavisine yanıt alınamayan hasta, radyolojik olarak akciğerde kitle görünümü olması üzerine kliniğimize devralındı. Balgam ve bronş lavajında Asidorezistan bakteri negatif bulundu. Aksiller lenf bezi eksiyonu ile tüberküloz tanısı konuldu. Antitüberküloz tedavi ile ateşi düştü ve klinik düzelleme sağlandı. Oldukça nadir görülmesi ve prevalansın yüksek olduğu bölgemizde, çok değişik klinik ve radyolojik bulgularla karşımıza çıkabilen tüberkülozun, her zaman akılda tutulmasını vurgulamak amacıyla olguyu sunuyoruz.

#### Anahtar Kelimeler

Tüberküloz; Ateş; Akciğer Kanseri

#### Abstract

Tuberculosis may occur with very different clinical and radiological features. Therefore, can be difficulties from time to time in the differential diagnosis. 22-year-old male patient with a history of drug use, presenting with high fever was admitted to the Infectious Diseases Clinic. Patient who fail to respond to empiric antibiotic therapy was transferred to our clinic due to the radiologically mass in the lung. Acid-fast bacilli were negative in sputum and bronchial lavage, tuberculosis was diagnosed with excision of the axillary lymphadenomegaly. Fever fell down with antituberculosis treatment and clinical improvement was observed. We present the case of tuberculosis which have with different clinical and radiological findings, in order to always keep in mind.

#### Keywords

Tuberculosis; Fever; Lung Cancer

DOI: 10.4328/JCAM.3273

Received: 29.01.2015 Accepted: 09.03.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 493-5

Corresponding Author: Yusuf Aydemir, Göğüs Hastalıkları Kliniği, Sakarya Üniversitesi Tıp Fakültesi, 54100, Sakarya, Türkiye.

GSM: +905056369494 F.: +90 2642759192 E-Mail: dryaydemir@yahoo.com

## Giriş

Tüberküloz, çok farklı klinik özelliklere ve radyolojik görünümlere sahip olabilmesi nedeniyle, tanısında hala güçlük çekilen önemli bir sağlık sorunudur. Nadiren radyolojik olarak kitle görünümü verebilir ve malignite ön tanısıyla invaziv girişimler gerektirebilir [1-3]. Sebebi bilinmeyen ateş etyolojisinde tüberküloz ön sıralarda yer almakla birlikte 40 C° üzeri ateş olması oldukça seyrek [4]. Sebebi bilinmeyen ateş etyolojisi ile infeksiyon hastalıkları kliniğine yatırılmış ve akciğer grafisinde sol hiler kitle görülmesi üzerine kliniğimize devralınan, nötropenik ateşli bir olgu sunuyoruz.

## Olgu Sunumu

22 yaşında erkek hasta, 1 ay önce başlayan iştahsızlık ve 12 kg kilo kaybı, 10 gün önce başlayan ateş şikayetleri ile başvurmuş ve ateş etyolojisi araştırılması için enfeksiyon hastalıkları kliniğine yatırılmış. Hastanın akciğer grafisinde ve toraks tomografisinde (BT) hiler kitle görülmesi üzerine göğüs hastalıkları kliniğine yatırıldı. Özgeçmişinden 3 yıl boyunca uyuşturucu madde kullandığı, son 1 yıldır tamamen bıraktığı öğrenildi. Fizik muayenede genel durum orta, kaşektik görünümde ve 46 kg ağırlığında, deri soluk, ateş:39.6 °C idi. Solunum ve diğer sistem muayeneleri normaldi. Laboratuvar incelemesinde sedimentasyon: 70mm/saat, C-reaktif protein:21.9 mg/L, lökosit:2.7 K/uL, hemoglobin: 10.3g/dl, trombosit: 150 K/uL, anti HCV:14.49 olarak ölçüldü. Diğer tetkikleri normaldi. Akciğer grafisinde, sol hiler kitle görünümü vardı (Resim:1). Toraks BT'de sol perihiler alan-



Resim 1. PA Akciğer grafide sol hiler kitle görünümü

da, içerisinde hipodens nekrotik alanların izlendiği, 40x42mm boyutlarında kitle izlendi (Resim:2). Hastaya bronkoskopi yapıldı. Tüm lob ve segment bronşları açık izlendi. Sol sistemden lavaj ve lingular segmentlerden transbronşiyal iğne biyopsisi alındı. Bronş lavajında asidorezistan bakteri (ARB) ve lökosit görülmedi. Batın ultrasonografisinde (USG) hepatomegali (170 mm) ve splenomegali (191 mm) izlendi. Prokalsitonin değerinin 0.19 ng/ml olması ve ateş yüksekliğinin devam etmesi nedeniyle hastaya Seftriakson IV başlandı. Her gece ateşi 40 °C üzerine çıkan hastanın, ateşli dönemlerinde 2 kez alınan kan kültürlerinde üreme olmadı. Üçüncü gün sonunda ateşin düşmemesi üzerine tedaviye (antipsedomonal etkisi ve atipik etkenleri de kapsamaması nedeniyle) moksifloksasin eklendi. Ancak ateş yüksekli-



Resim 2. Toraks BT'de sol perihiler alanda 40x42mm boyutlarında kitle

ği devam etti. Hastanın geçmişinde intravenöz madde kullanımını öyküsü olması nedeniyle, ekokardiyografi yapılarak, infektif endokardit tanısı dışlandı. Bisitopeni olması nedeniyle periferik yayma yapıldı, atipik hücreye rastlanmadı. Bronkoskopik biopsi ve lavajda patolojik inceleme sonucu malign hücreye rastlanmadı. Hastaya, ele gelmemesine rağmen periferik lenf bölgelerine yönelik USG yapıldı. Sol supraklaviküler ve her iki aksillar bölgede, en büyükleri 28x8 mm olan lenfadenomegaliler (LAM) izlendi. Hastaya sol supraklaviküler ve sol aksiller LAP eksizeyonu yapıldı. Geçen sürede tedaviye rağmen ateşi hiç düşmeyen ve 41°C'ye kadar çıkan hastanın genel durumu gittikçe kötüleşti. Kontrol akciğer grafisinde sol hiler lezyonun genişlediği ve mikronodüler-miliyer görünüm oluştuğu izlendi. Tekrar çekilen toraks BT'de milier yayılım görüldü (Resim 3). Lenf bezi pa-

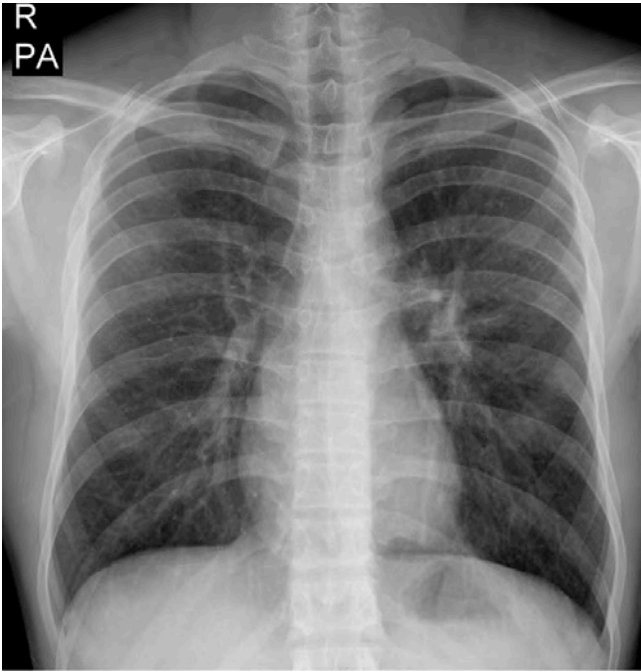


Resim 3. Toraks BT'de mikronodüler-miliyer yayılım

tolojik inceleme sonucunun 'kazeifikasyon nekrozu olan granülomatoz lenfadenit' olarak raporlanması üzerine, hastaya anti-tüberküloz tedavi başlandı. Tedavinin dördüncü günü ateşi düşen hasta, onuncu gün taburcu edildi. Takiplerinde, bronş lavajı kültüründe Mycobacterium tuberculosis üremesi saptandı. İlaç direnç testleri negatif idi. Klinik radyolojik düzelme ile (Resim:4) altıncı ayın sonunda tedavi sonlandırıldı.

## Tartışma

Etkin Tüberküloz (TB) savaşı neticesinde yıllar içerisinde akciğer tüberkülozu olgu sayısında ciddi oranda azalma görülürken, ekstrapulmoner TB olgularında oransal olarak bir artış söz konusudur. Halen ülkemizde %39 olarak bildirilen akciğer dışı TB oranı, beraberinde birtakım tanısız güçlükleri de getirmiştir [1]. Ekstrapulmoner organ tutulumunda, %38 ile ilk sırayı alan tüberkü-



Resim 4. Tedavi sonrası PA Akciğer grafisinde radyolojik düzelme izleniyor.

loz lenfadenit, en sık baş-boyun bölgesi lenf bezlerinde görülür. Basilin vücuda giriş yoluna ve lenfatik drenaja bağlı olarak, servikal ve supraklaviküler lenf bezleri hastalıktan en fazla etkilenir. Ekstratorasik lenfadenitlerde, ele gelen lenf bezlerinin eksizyonel biyopsisi ile tanı nisbeten daha kolaydır. İntratorasik lenf bezleri tutulumu ise, tüberküloz lenfadenit olgularının %7,8'inde gözlenir [1]. Ancak olgumuzda olduğu gibi, 4x4 cm üzeri boyutlara ulaşmış ve kitle görüntüsü veren mediastinal tüberküloz ise oldukça nadirdir. Maligniteyi taklit eden mediastinal tüberküloz olgularını değerlendiren bir çalışmada ortalama lezyon boyu 2,3 cm olarak bildirilmiştir [2].

Akciğer tüberkülozlu 597 hastanın incelendiği bir çalışmada, 11 hastada kitle benzeri lezyonlar bildirilmiştir [3]. Bu radyolojik görünüme sahip hastalarda tüberküloz, genellikle akciğer kanseri ve lenfoma ile karışabilir. Mediastinal tüberküloz lenfadenitlerde, eğer parankimal lezyon yok ise tanıya ulaşmak oldukça zordur. Fiberoptik bronkoskopi incelemesi genellikle normaldir ve alınan transbronşiyal biyopsi veya lenf bezi iğne aspirasyon yaymalarının tanı oranı çok düşüktür [5]. Tanı genellikle tomografi eşliğinde ince iğne biyopsisi, ultrason eşliğinde transbronşiyal biyopsi, mediastinoskopi ve torakotomi gibi ileri invaziv işlemler sonucunda koyulur. Olgumuzda da bronkoskopi normaldi, alınan biyopsiler ve lavajın patolojik-mikrobiyolojik incelemesi ile tanı konulamadı ve sol supraklaviküler-aksiller LAM eksizyonu yapıldı.

Hiler ve mediastinal lenfadenopati daha çok primer (çocuk tipi) tüberkülozun bulgusudur ve yetişkinlerde nadir görülür. Parankimal hastalık olmadan LAM olması da seyrek. Ayrıca miliyer tutulum da primer tüberkülozda daha sıktır [6]. Bu bilgiler ışığında olgumuzdaki tüberkülozun primer TB olduğu düşünüldü.

Sebebi bilinmeyen ateş, üç haftadan uzun süren ve zorunlu testlere rağmen kesin tanı konulamayan durumları tanımlar. Ülkemizde 857 hastayla yapılan bir çalışmada %36.4 ile en sık sebep, tüberküloz olarak bulunmuştur [7]. Tüberküloz hastalarında ateş sık görülen bir bulgu olmakla birlikte, yüksek ateş ilk başvuru şikâyetleri arasında yer almaz. Genellikle tüberküloz ate-

şi orta ve düşük derecededir [4]. Olgumuzda olduğu gibi ateşin 41°C üzerine çıkması çok nadirdir. Tüberküloz hastalarında ateşi değerlendiren bir çalışmada; ateşin, hematolojik bozukluklarla, bir diğer çalışmada ise alkolizm ile ilişkili olduğu gösterilmiştir [8,9]. Olgumuzda uyuşturucu madde kullanımı ve nötropeni, yüksek ateş ile ilgili olabilir. Nötropenik hastalarda, geniş spektrumlu yoğun antibiyotik tedavisine rağmen ateş yüksekliğinin devam ettiği durumlarda, tüberküloz ayırıcı tanılar arasında yer almalıdır.

Sonuç olarak, TB insidans ve prevalansının yüksek olduğu ülkemizde, çok değişik klinik ve radyolojik bulgularla karşımıza çıkabilen tüberkülozu, her zaman ön tanılarımız arasına koymanın yararlı olacağını düşünüyoruz.

#### Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

#### Kaynaklar

1. Özkan S, Musaonbaşıoğlu O. editörler. Türkiye'de Verem Savaşı 2013 Raporu. Ankara: Sağlık Bakanlığı Yayın No: 984; 2014.p.56-9.
2. Chawalparit O, Charoensak A, Chierakul N. HRCT of pulmonary tuberculosis mimics malignancy: a preliminary report. J Med Assoc Thai 2006;89(2):190-5.
3. Cherian MJ, Dahniya MH, al-Marzouk NF, Abel A, Bader S, Buerki K, et al. Pulmonary tuberculosis presenting as mass lesions and simulating neoplasms in adults. Australas Radiol 1998;42(4):303-8.
4. Sia IG, Wieland ML. Current concepts in the management of tuberculosis. Mayo Clin Proc 2011;86(4):348-61.
5. Khan J, Akhtar M, von Sinner WN, Bouchama A, Bazarbashi M. CT-guided fine needle aspiration biopsy in the diagnosis of mediastinal tuberculosis. Chest 1994;106(5):1329-32.
6. McAdams HP, Erasmus J, Winter JA. Radiologic manifestations of pulmonary tuberculosis. Radiol Clin North Am 1995;33(4):655-78.
7. Sipahi OR, Senol S, Arsu G, Pullukcu H, Tasbakan M, Yamazhan T, et al. Pooled analysis of 857 published adult fever of unknown origin cases in Turkey between 1990-2006. Med Sci Monit 2007;13(7):318-22.
8. Barnes PF, Chan LS, Wong SF. The course of fever during treatment of pulmonary tuberculosis. Tubercle 1987;68(4):255-60.
9. Kiblawi SS, Jay SJ, Stonehill RB, Norton J. Fever response of patients on therapy for pulmonary tuberculosis. Am Rev Respir Dis 1981;123(1):20-4.

#### How to cite this article:

Aydemir Y, Şehitoğulları A, Yılmaz M. Tuberculosis Patients Admitted with High Fever and Hilar Mass. J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 493-5.



## Intrauterin Device Migration to the Bladder and Endoscopic Treatment; Case Report

### Mesaneye Rahim İçi Araç Migrasyonu ve Endoskopik Tedavisi; Olgu Sunumu

Mesanede Rahim İçi Araç / Intrauterin Device in Bladder

İdris Kıvanç Cavıldak, İsmail Nalbant, Ufuk Öztürk, Can Tuğgun, H.N.Göksel Göktuğ  
Üroloji Kliniği, Dışkapı Yıldırım Beyazıt Eğitim Araştırma Hastanesi, Ankara, Türkiye

#### Özet

Rahim içi araç (RİA) uzun süreli, etkili ve tekrar kullanıma müsait yaygın bir kontrasepsiyon yöntemidir. RİA'nın mesaneye migrasyonu nadir görülen bir komplikasyondur. Kronik pelvik ağrı, vajinal akıntı, dirençli idrar yolu enfeksiyonu ve irritatif işeme bulguları varlığında RİA'nın mesane migrasyonu akla gelmelidir. Bu çalışmada mesanede taşlaşmış RİA olgusunun sunulması amaçlanmıştır.

#### Anahtar Kelimeler

Rahim İçi Araç; Mesane Taşı; Uterus Perforasyonu

#### Abstract

An intrauterine device (IUD) is a long term, efficient, reversible and common method of contraception. IUD migration into the bladder is a rarely observed complication. Chronic pelvic pain, vaginal discharge, resistant urinary tract infections and bladder irritative voiding symptoms in the presence of IUD migration should be considered. This study aimed to report cases of bladder petrified IUD.

#### Keywords

Intrauterine Device; Urinary Bladder Calculi; Uterine Perforation

DOI: 10.4328/JCAM.3329

Received: 19.02.2015 Accepted: 11.03.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 496-8

Corresponding Author: İsmail Nalbant, Üroloji Kliniği, Dışkapı Yıldırım Beyazıt Eğitim Araştırma Hastanesi, Ankara, Türkiye.

GSM: +905054602340 E-Mail: nalbant60@yahoo.com

## Giriş

Rahim içi araç (RİA), reversible, düşük komplikasyon ve maliyet oranları nedeniyle en çok kullanılan kontrasepsiyon yöntemidir [1]. RİA yerleştirme sırasında veya daha sonra yer değiştirme ile uterus perforasyonu sonucu mesaneye migrasyonu nadir bir komplikasyondur. Biz bu çalışmamızda 5 yıl önce takılıp mesaneye migrate olmuş ve taşlaşmış RİA olgusunu sunmayı amaçladık.

## Olgu Sunumu

Yaklaşık 5 yıl önce RİA takılıp son 1 aydır da geçmeyen dizüri, hematüri ve pelvik ağrısı olan 32 yaşında ki hastanın kliniğimize başvurması üzerine yapılan tam idrar tetkikinde 105 eritrosit, 3 lökosit mevcutken idrar kültüründe üreme saptanmamıştır. Hemodinamik testleri de normal olan hastanın çekilen di-rek grafisinde (resim 1) mevcut RİA'nın mesaneye migrate oldu-



Resim 1. Mesaneye migrate RİA

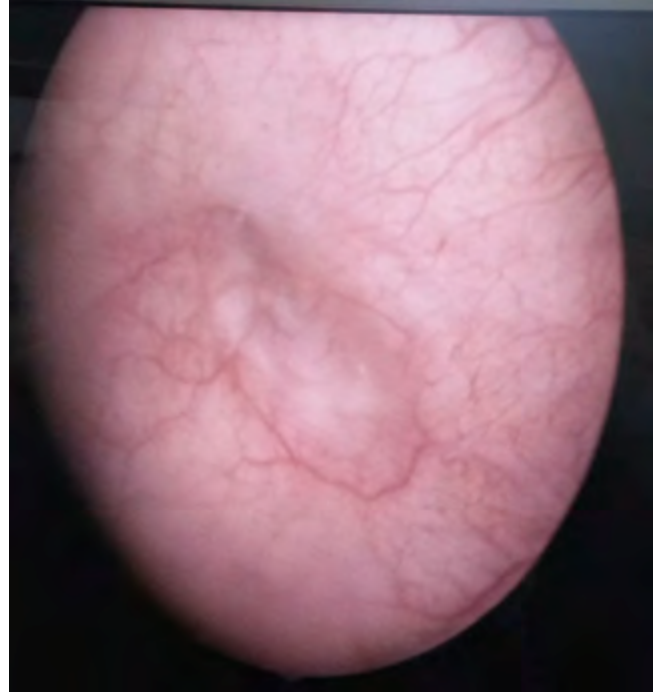
ğu düşünülmüş ve yapılan ultrasonografide (USG) de mesane içinde RİA'a ait olabileceği düşünülen görünüm izlenmiştir şeklinde raporlanmıştır.

Hastaya genel anestezi altında endoskopi uygulandı ve mesanede taşlaşmış RİA (resim 2) forcepsle ekstrakte edildikten sonra yapılan kontrol sistoskopisinde herhangi bir fistül traktına ve patolojik oluşuma rastlanmazken sol yan duvar-taban bileşke-de skleroze görünüm izlendi (resim 3). Söz konusu lezyon hastanın mevcut yaşı, anamnezi, klinik bulguları, görüntüleme yöntemleri ve yapılan sistoskopik incelemesi göz önüne alındığında, ürotelyal malignite düşünülmemiş ve RİA'nın mesaneye giriş traktı olduğu düşünüldüğü mevcut görünüm perforasyon lehine yorumlanmıştır.

Postoperatif 1. günde sorunsuz bir şekilde taburcu edilen hastanın 1. ay kontrolünde herhangi bir komplikasyon veya fistül bulgusuna rastlanmamıştır.



Resim 2. İntravesikal RİA



Resim 3. Mesane sol yan duvar perforasyon hattı

## Tartışma

RİA yaygın kullanılan, güvenilir kontrasepsiyon yöntemlerinden biri olup intraabdominal ve komşu organlara migrasyonu nadir görülmekle beraber tedavi edilebilir bir komplikasyondur. RİA migrasyonu nedeniyle oluşan uterus perforasyonu insidansı 1000 olguda 0.87-1.6 oranında saptanmıştır [2]. Nadir görülen perforasyon, literatürde çeşitli sebeplere bağlanmış ve çoğu yazar da RİA uygulamasının bu konuda uzmanlaşmış kişilerce uygulanması gerekliliğine inandıklarını belirtmişlerdir [3-5]. Bunun dışında Actinomyces enfeksiyonu varlığı [6,7] yüksek efor gerektiren işlerde çalışılması durumları, postpartum ve laktasyon dönemleri ile hipoöstrojenemi gibi uterus duvarının incelendiği süreçlerde uterusun perforasyona daha yatkın olduğu bildirilmiştir [4,5,8]. RİA migrasyonu, sıklıkla peritoneal kavite, omentum, ileum, sigmoid kolon, rektum ve mesaneye görülmektedir [9]. Mesaneye migrate olmuş RİA yerleşimi literatürde daha çok arka duvarda bildirilirken [10,11], bizim olgumuzda daha skleroze ve iyileşmiş perforasyon hattı görünümünden dolayı mesane tabanı-sol yan duvar bileşkeye yerleşmiş olduğunu saptamış bulunmaktayız.

İntravesikal RİA, asemptomatik olabileceği gibi dizüri, hematüri, tekrarlayan idrar yolu enfeksiyonu ve alt abdominal bölgede ağrıya neden olabilir. Bayan hastaların üroloji polikliniklerine

sık başvuru nedenlerinden olan bu şikayetlerin kaynağının az da olsa RİA migrasyonu olabileceği ihtimali unutulmamalıdır. İntravesikal RİA, USG ve pelvik grafi gibi radyolojik yöntemlerle de üzerinde kalsifikasyon ve taş oluşumu görülebilmektedir [8]. Literatürde taş oluşum miktarı ve süresine dair fikir birliği bulunmamaktadır. Çeşitli çalışmalarda mesane perforasyonu sonrası ilk 6 ayda [12] veya 3 yılda [13] çıkabileceği ifade edilirken bu durumun mesanenin RİA'a maruziyetinden bağımsız olduğunu iddia eden çalışmalarda bulunmaktadır [14]. Bizim olgumuzda irritatif işeme belirtileri ile polikliniğimize başvurmuş ve şikayetleri RİA yerleştirilmesinden beş yıl sonra çıkmış olup üzerinde taş oluşumu görülmüştür.

Kayıp RİA, ağrı, enfeksiyon, komşu organ hasarı, intraabdominal adezyon, intestinal obstruksiyon, hatta sepsis gibi komplikasyonlara sebep olabileceği ihtimallerinden dolayı ortaya konulması ve tedavi edilmesi gereken bir durumdur [3,4,8,15,16]. Tedavide açık cerrahi ile laparoskopi ve endoskopi gibi minimal invaziv yöntemler tercih edilebilmektedir. Açık cerrahi genellikle RİA üzerinde oluşmuş büyük boyutlu taşların çıkarılması amacıyla uygulanabilir [17]. Markovitch ve ark. uygun hastalarda konservatif yaklaşımı da tavsiye etmekteyse de [6] intravesikal RİA durumlarında, ürotelyumdaki yabancı cisimlerin alt üriner sistem semptom ve taş oluşum potansiyellerinden ötürü tedavi gerektirmektedir [8,15]. Biz de hastamızda tespit ettiğimiz intravesikal RİA'ı endoskopik yöntem ile çıkarabildik.

## Sonuç

RİA uygulanmış bayanlarda, tedaviye dirençli üriner enfeksiyon, disparoni, dizüri gibi alt üriner sistem semptomları varlığında RİA migrasyonu akla gelmeli, tanı ve tedavi bu istikamette yönlendirilmelidir diye düşünmekteyiz.

## Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

## Kaynaklar

1. Dede FS, Dilbaz B, Sahin D, Dilbaz S. Vesical calculus formation around a migrated copper-T 380-A. Eur J Contracept Reprod Health Care 2006;11:50-2.
2. Harrison-Woolrych M, Ashton J, Coulter D. Uterine perforation on intrauterine device insertion: is the incidence higher than previously reported? Contraception 2003;67:53-6.
3. Özçelik B, Serin IS, Basbug M, Aygen E, Ekmekçioglu O. Differential diagnosis of intra-uterine device migrating to bladder using radiographic image of calculus formation and review of literature. Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol 2003;108:94-6.
4. Hoşcan MB, Koşar A, Gümüştaş U, Güney M. Intravesical migration of intrauterine device resulting in pregnancy. Int J Urol 2006;13:301-2.
5. Güvel S, Tekin MI, Kilinç F, Peskircioglu L, Ozkardeş H. Bladder stones around a migrated and missed intrauterine contraceptive device. Int J Urol 2001; 8:78-9.
6. Markovitch O, Klein Z, Gidoni Y, Holzinger M, Beyth Y. Extrauterine mislocated IUD: is surgical removal mandatory? Contraception 2002;66:105-8.
7. Phupong V, Sueblinong T, Pruksananonda K, Taneepanichskul S, Triratanachat S. Uterine perforation with Lippes loop intrauterine device-associated actinomyces: a case report and review of the literature. Contraception 2000;61:347-50.
8. Atakan H, Kaplan M, Erturk E. Intravesical migration of intrauterine device resulting in stone formation. Urology 2002;60:911.
9. Kassab B, Audra P. The migrating intrauterine device. Case report and review of the 165 cases. Concept Fert Sex 1999;27:696-700.
10. Singh I. Intravesical Cu-T emigration: an atypical and infrequent cause of vesical calculus. Int Urol Nephrol 2007;39(2):457-9.
11. Tosun M, Celik H, Yavuz E, Cetinkaya MB. Intravesical migration of an intrauterine device detected in a pregnant woman. Can Urol Assoc J 2010;4(5):141-3.
12. Zakin D. Perforation of the Bladder by the Intrauterine Device. Obstetrical Gynecol Surv 1984;39(2):59-66.
13. Kiilholma P, Makinene J, Vuori J. Bladder perforation: uncommon complications with a misplaced IUD. Contraception 1989;5(1):47-9.
14. Rafique M, Rauf N, Khan A, Haque TU. An unusual cause of vesical stone: a

migrant intrauterine device. Health Care 2003;8:170-2.

15. Özgür A, Şişmanoğlu A, Yazıcı C, Coşar E, Tezen D, İlker Y. Intravesical stone formation on intrauterine contraceptive device. Int Urol Nephrol 2004;36:345-8.

16. Hick EJ, Hernández J, Yordán R, Morey AF, Avilés R, García CR. Bladder calculus resulting from the migration of an intrauterine contraceptive device. J Urol 2004;172:1903.

17. Maskey CP, Rahman M, Sigdar TK, Johnsen R. Vesical calculus around an intrauterine contraceptive device. Br J Urol 1997;79: 654-5.

## How to cite this article:

Cavıldak İK, Nalbant İ, Öztürk U, Tuygun C, Göksel Göktuğ H.N. Intrauterin Device Migration to the Bladder and Endoscopic Treatment; Case Report. J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 496-8.



## Primary Percutaneous Coronary Intervention in Anomalous High Anterior Takeoff Right Coronary Artery

### Yukarı-Ön Çıkışlı Sağ Koroner Arter Anomalisinde Primer Perkütan Koroner Girişim

Koroner Arter Anomalisinde Primer PCI / Primary PCI in Coronary Artery Anomalous

Adem Bekler, Burak Altun, Ufuk Ozturk, Ahmet Temiz, Emine Gazi  
Department of Cardiology, Canakkale Onsekiz Mart University, School of Medicine, Canakkale, Turkey

Paper accepted to be presented at 2<sup>nd</sup> Kardiyo-Bahar Conference 05-08 March 2015, Cyprus

#### Özet

Primer perkütan koroner girişim (PCI) da kısa ve uzun dönem mortaliteye etki eden önemli parametrelerden biri de 'door to balloon time' dir. Sorumlu lezyonun oldukça nadir görülen koroner arter çıkış anomalisinin olması ve koroner artere kanülasyon için uygun kateter bulunamaması bu sürenin uzamasına neden olabilir. Burada; literatürdeki ilk vaka olan, akut inferior miyokard enfarktüsü (MI) ile başvuran hastada sorumlu lezyonun yüksek anterior çıkışlı sağ koroner arter (RCA)'nın olduğu nadir görülen koroner anomaliye modifiye edilmiş sol guiding kateter yardımıyla başarılı primer PCI uygulanan vaka sunuldu.

#### Anahtar Kelimeler

Guiding Kateter; Yukarı-Ön Çıkışlı RCA; Primer PCI

#### Abstract

One of the important parameters that influence the short and long-term mortality in primary percutaneous coronary intervention (PCI) is door to balloon time. Because culprit lesion is extremely rare anomalous origin of coronary artery and there is no proper catheter for coronary artery cannulation, this period may take longer. Here; the case that is the first in the literature, in which the culprit lesion was high anterior takeoff right coronary artery (RCA) in the patient admitted to hospital with acute inferior myocardial infarction (MI), and in which a successful primary PCI was applied to a rare coronary anomaly with the help of a reshaped left guiding catheter was presented.

#### Keywords

Guiding Catheter, High Anterior Takeoff RCA, Primary PCI

DOI: 10.4328/JCAM.3357

Received: 03.03.2015 Accepted: 11.03.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 499-501

Corresponding Author: Adem Bekler, Department of Cardiology, School of Medicine, Canakkale Onsekiz Mart University, Research and Training Hospital, 17110, Kepez, Canakkale, Turkey. T.: +90 2862635950 GSM: +905055100653 F.: +90 2862635956 E-Mail: adembekler27@gmail.com

## Introduction

ST elevation acute coronary syndrome (STE-ACS) is the major reason affecting morbidity and mortality in developed countries. The most effective way of reducing mortality in STE-ACS is initiation of interventional (primary PCI) or thrombolytic therapy as soon as possible. Door to balloon time has been shown to be an important parameter affecting short and long term mortality in STE-ACS, and morbidity ve mortality of the patients with shorter door to balloon time is less than the others.

The incidence of coronary artery anomalies (CAA) are between 0.3% and 1.3% in general population and these patients who are usually asymptomatic may be admitted to the hospital with a variety of clinics, including sudden cardiac death [1]. One of the very rare subtypes of CAA is anomalous right coronary artery (RCA) with high anterior takeoff [2]. Various catheters are used for this anomaly which is quite difficult to cannulate in selective coronary angiography, but this increases the time and the cost of procedure. When patients with rare CAA are admitted to hospital with STE-ACS, because of these difficulties, door to balloon time may increase. However, this problem can be avoided with catheters providing adequate and appropriate back-up [3]. Here, we presented the case in which the culprit lesion was high anterior takeoff RCA and in which cannulation can not be achieved despite the use of numerous catheters, but cannulation and adequate back-up was provided after the use of a reshaped Judkins left guiding catheter.

## Case Report

55 year old male patient with typical anginal pain in last 6 hours was admitted to our hospital. There were no risk factors for coronary artery disease except smoking. There were 2/6 systolic murmur on mitral valve area in cardiac auscultation, and ST elevation in the inferior leads and reciprocal ST depression in leads V1-V3 on admission electrocardiography. The patient with wall motion abnormalities on echocardiography was taken to the catheter laboratory for primary PCI with the diagnosis of acute inferior MI. In left coronary angiography via the femoral artery, cannulation of the left main coronary artery was achieved with Judkins left 6-F catheter and no significant lesions in the left coronary system was determined (Figure 1). RCA could not be displayed with Judkins guiding catheters of different sizes and then aortography was performed. In aortography RCA was observed as ghost-like image (Figure 2), and despite the use of, respectively, Amplatz left and right (AR-AL), right coronary bypass (RCB) and multipurpose guiding catheters, cannulation still was not achieved. Finally, Judkins left 6-F guiding catheter was reshaped manually by increasing the primary and secondary slopes up to 100-110 degrees, and quite good cannulation and sufficient back-up was provided. In the imaging, high anterior takeoff of RCA and in the mid-region of RCA thrombosed lesion causing 99% stenosis was determined (Figure 3). RCA lesion was passed through by 0,014 inch Asahi™ floppy guide-wire (Asahi Intecc, Aichi, Japan) and after predilatation by 2.0 mm\*20 mm Alvimedica Invader® balloon (Alvimedica, Istanbul, Turkey), 2.75 mm\*24 mm Biomime™ sirolimus eluting stent (Meril Life Sciences, Vapi, India) was implanted and the lesion had <10% residual stenosis at the end of the procedure (Figure 4). There was no complication during the procedure and two



Figure 1. Angiogram showing no significant stenosis in the left anterior descending and circumflex artery.

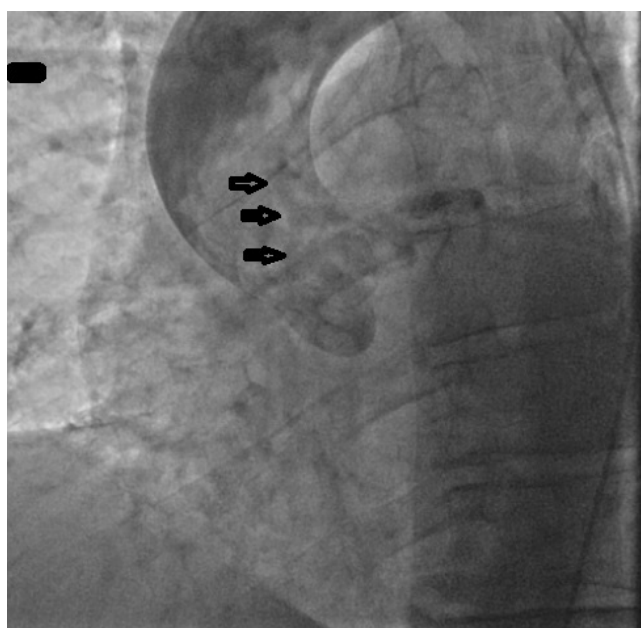


Figure 2. Aortogram showing ghost-like image the orifice of the high anterior takeoff right coronary artery.

days later the patient was discharged uneventfully.

## Discussion

In STE-ACS cases which account for approximately 30% of all cases of ACS, reperfusion therapy plays a key role in reducing morbidity and mortality and reperfusion therapy can be performed by primary PCI which is an invasive way or by thrombolytic therapy. One of the most important factors influencing the decision of primary PCI is door to balloon time and this time is recommended to be under 90 minutes in patients with STE-ACS for effective benefits and every minute over 90 minutes increases mortality. But unfortunately, in some patients taken to the catheter laboratory for primary PCI, complexity of the culprit lesion and presence of CAA restricting cannulation or adequate back-up may increase this time.

The frequency of CAA in the general population has been re-





Figure 3. Coronary angiogram of the high anterior takeoff right coronary artery (RCA) engaged with reshaped Judkins left 6-F guiding catheter and showing critical stenosis in the mid-RCA.



Figure 4. Angiogram showing good flow in the high anterior takeoff right coronary artery after primary percutaneous coronary intervention.

ported to be between 0.3% -1.3%, and these patients who are usually asymptomatic may present with a variety of clinics including sudden cardiac death [1]. High anterior takeoff RCA anomaly is an extremely rare subtype of all CAA [2]. Therefore, no case has been reported so far in which this extremely rare anomaly is culprit lesion for acute STE-ACS and from this perspective, the case that we reported is the first case in the literature. Recently Marchesini et al. reported that there were only 5 coronary anomalies in 1015 patients with STE-ACS admitted to their centers and they mentioned about the complexity of two cases and reported that presence of CAA as culprit lesion in STE-ACS complicates primary PCI procedure [4]. Komatsu et al. determined high anterior takeoff RCA anomaly in a patient admitted with non-ST elevation ACS and they could not achieve selective cannulation of RCA with standard catheters and they stented the lesion in RCA with the help of DIO Thrombus Aspi-

ration Catheter [3]. In another case, Turgut et al. thought that in a patient without ACS who has angina refractory to medical treatment, the culprit lesion causing symptoms was chronic total occlusion in high anterior takeoff RCA, and they achieved the cannulation of RCA with the help of RCB guiding catheter [5]. On the other hand, in their study conducted in 837 patients, Akgun et al. showed that there was only one high anterior takeoff RCA in 49 patients in which cannulation of the RCA could not be achieved and selective cannulation may be achieved by reshaping the left Judkins catheter [6]. For providing adequate back-up in RCA anomalies arising from the left sinus of valsalva, Cohen et al. showed in two cases that Judkins left guiding catheter can be used and Caliskan et al. showed that multipurpose Hockey Stick guiding catheter can be used [7,8].

As a result, when rare seen high anterior takeoff RCA is the culprit lesion in STE-ACS, to provide adequate support for selective cannulation and primary PCI, manually reshaped Judkins left guiding catheter can be used as we did in our case. Also, this method can contribute to the reduction of morbidity and mortality by reducing procedure time and the amount of opaque.

#### Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

#### References

1. Angelini P, Velasco JA, Flamm S. Coronary anomalies: incidence, pathophysiology, and clinical relevance. *Circulation* 2002;105(20):2449-54.
2. Tarhan A, Kehlibar T, Yilmaz M, Aslan Y, Pancaroglu C, Yigit S, et al. Right coronary artery with high takeoff. *Ann Thorac Surg* 2007;83(5):1867-9.
3. Komatsu T, Yaguchi I, Yufu T. Successful percutaneous coronary intervention of an anomalous right coronary artery with high anterior takeoff using a DIO thrombus aspiration catheter. *J Invasive Cardiol* 2012;24(9):185-7.
4. Marchesini J, Campo G, Righi R, Benea G, Ferrari G. Coronary artery anomalies presenting with ST-segment elevation myocardial infarction. *Clin Pract* 2011;1(4):28.
5. Turgut O, Tandogan I, Dizman R. Use of the RCB guide in PCI of a chronic total occlusion in an anomalous right coronary artery with high anterior takeoff. *J Invasive Cardiol* 2009;21(4):70-2.
6. Akgun T, Tanboga IH, Oduncu V, Kurt M, Cimen AO, Bitigen A. Reshaping the left Judkins catheter for a right coronary angiogram in the anomalous aortic origin of the right coronary: killing two birds with one left Judkins. *Turk Kardiyol Dern Ars* 2012;40(6):513-7.
7. Caliskan M, Ciftci O, Gullu H, Alpaslan M. Anomalous right coronary artery from the left sinus of Valsalva presenting a challenge for percutaneous coronary intervention. *Turk Kardiyol Dern Ars* 2009;37(1):44-7.
8. Cohen MG, Tolleson TR, Peter RH, Harrison JK, Sketch MH Jr. Successful percutaneous coronary intervention with stent implantation in anomalous right coronary arteries arising from the left sinus of valsalva: a report of two cases. *Catheter Cardiovasc Interv* 2002;55(1):105-8.

#### How to cite this article:

Bekler A, Altun B, Ozturk U, Temiz A, Gazi E. Primary Percutaneous Coronary Intervention in Anomalous High Anterior Takeoff Right Coronary Artery. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 499-501.



## Vulvar Leiomyoma: Report of a Rare Case and Review of the Literature

### Vulvar Leiomyom: Nadir Bir Olgunun Sunumu ve Literatürün Gözden Geçirilmesi

Nadir Bir Vulvar Leiomyom Olgusu / A Rare Case of Vulvar Leiomyoma

Fikriye Işıl Adıgüzel<sup>1</sup>, Cevdet Adıgüzel<sup>2</sup>, Selim Mısırlıoğlu<sup>2</sup>, Sevtap Seyfettinoğlu<sup>2</sup>, Pelin Demirtürk<sup>3</sup>  
<sup>1</sup>Kadın Hastalıkları ve Doğum Bölümü, Adana Kadın Doğum ve Çocuk Hastanesi,  
<sup>2</sup>Kadın Hastalıkları ve Doğum Bölümü, Adana Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi,  
<sup>3</sup>Patoloji Bölümü, Adana Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Adana, Türkiye

#### Özet

Vulvar leiomyom, vulvar kitle ile prezente olan kadınlarda nadiren saptanan bir tümördür. Ayırıcı tanıda vulvanın invaziv kanseri, vulvar leiomyosarkom, Bartholin glandı kisti ve tümörleri yer almalıdır. Vulvar leiomyom tedavisinde, genellikle kitlenin basit eksizyonu yeterlidir. Sarkomatöz değişim gösteren olguların tedavisinde kemoterapi ve radyoterapi gibi ek tedavi modalitelerinin kullanılması gerekebilir. Mevcut yazıda nadir saptanan bir vulvar leiomyom olgusu sunulmuş ve literatür eşliğinde tartışılmıştır.

#### Anahtar Kelimeler

Leiomyom; Leiomyosarkom; Vulvar Kitle

#### Abstract

Vulvar leiomyoma is a rare tumor, which may be diagnosed in women who present with a vulvar mass. Invasive vulvar cancer, vulvar leiomyosarcoma, Bartholin gland cysts and tumors should be considered in differential diagnosis. For the treatment of vulvar leiomyoma, simple excision of the mass is generally adequate. In cases with sarcomatous differentiation, additional treatment modalities such as chemotherapy or radiotherapy may be utilized. In the present manuscript, a rare case of vulvar leiomyoma is reported and discussed in accordance with the relevant literature.

#### Keywords

Leiomyoma; Leiomyosarcoma; Vulvar Mass

DOI: 10.4328/JCAM.3354

Received: 01.03.2015 Accepted: 12.03.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 502-4

Corresponding Author: Cevdet Adıgüzel, Kadın Hastalıkları ve Doğum Bölümü, Adana Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Yüreğir, Adana, Türkiye.

GSM: +905302123362 E-Mail: cevdetadiguzel@yahoo.com

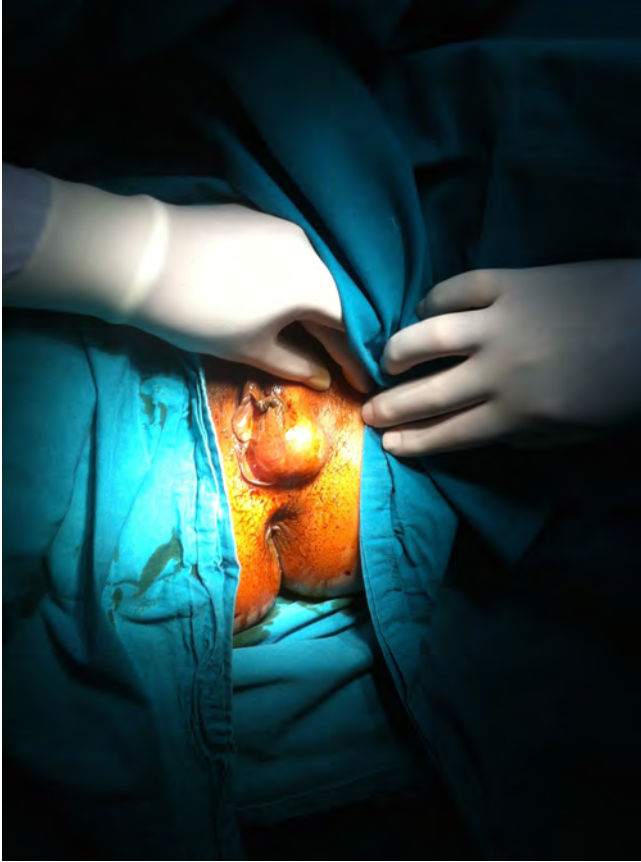
## Giriş

Leiomyomalar, düz kas hücrelerinden kaynaklanan benign tümörlerdir. Vulvar leiomyom genellikle uterus rotundum ligamentinden kaynaklanan, nadiren rastlanan ve literatürde genellikle olgu sunumu şeklinde bildirilen benign tümörlerdir[1]. Sıklıkla üreme çağında görülüp gebelikte büyümekle birlikte menapoz döneminde de görülebilmektedir. Hastaların çoğu asemptomatik olmakla beraber, vulvar bölgeden kaynaklanıp semptomatik seyreden vakalarda, benign veya malign ayrımı ile tanı ve tedavi için önerilen yöntem lokal eksizyondur.

Bu yazıda, kliniğimize vulvada ele gelen ağrılı kitle şikayeti ile başvuran, ve nihai patolojik tanısı vulvar miksoid leiomyom olarak bildirilen hasta sunulmuş ve literatür eşliğinde tartışılmıştır.

## Olgu Sunumu

Elli yaşında postmenopozal hasta, kliniğimize vulvar bölgede ele gelen sert ve ağrılı kitle şikayetiyle başvurdu. Pelvik muayenede sol labium majusta yaklaşık 5 cm boyutunda solid kitle saptandı (Resim 1). Transvajinal ultrasonografide uterus ve overler nor-



Resim 1. Vulvar kitlenin preoperatif resmi

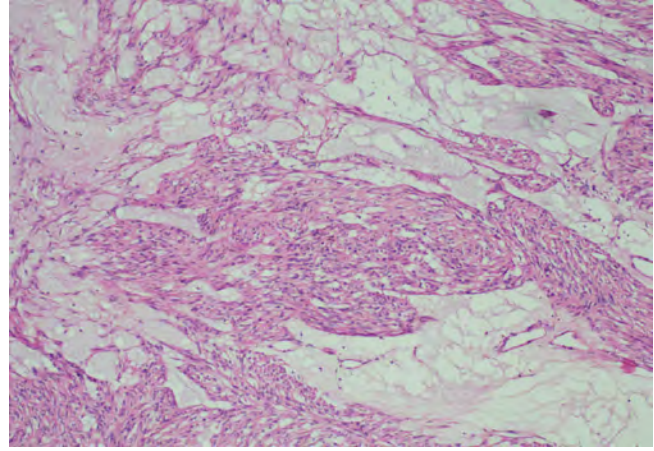
mal olarak izlendi. Laboratuvar incelemesinde hemogram, biyokimyasal tetkikleri ve tümör belirteçleri normal sınırlar içerisinde idi. Vulvar kitle ön tanısı ile operasyon kararı alındı.

Operasyonda kitle lokalizasyonundan yaklaşık 3 cm cilt insizyonu yapıldı, kitle tek parça halinde eksize edilerek patolojik inceleme için gönderildi. Postoperatif dönemde herhangi bir komplikasyon gelişmedi. Hasta postoperatif ikinci günde taburcu edildi. Histopatolojik incelemede, makroskopik olarak 6x3x2 cm ölçüsünde düzgün yüzeyli, ince bir kapsülle çevrili kesiti kirlili beyaz renkli polipoid solid kitle izlendi (Resim 2). Hematoksilin-eozin



Resim 2. Vulvar kitlenin eksize edilmiş hali

boyama sonrası mikroskopik bulgular miksoid leiomyom ile uyumlu idi (Resim 3). İmmunhistokimyasal tetkiklerde aktin ile



Resim 3: Vulvar kitlenin mikroskopik inceleme görüntüsü. Geniş müsin gölcükleri arasında iğsi hücrelerden oluşan neoplazm (miksoid leiomyom) (H&Ex100)

diffüz, desmin ile fokal pozitif boyanma saptandı. S100 ve CD34 ile boyanma görülmedi. Ki-67 proliferasyon indeksi çok düşük (< %1) olarak saptandı. Nihai patolojik tanı miksoid leiomyoma olarak rapor edildi.

## Tartışma

Leiomyomalar jinekoloji pratiğinde en sık karşılaşılan neoplazmlerdendir [2]. Çok büyük bir kısmı uterus yerleşimli olarak karşımıza çıkmaktadır. Ekstrauterin leiomyomlar literatürde nadirdir ve rotundum ligamenti boyunca abdominal, inguinal ve vulvar bölgelerde oluşabilirler. Rotundum ligamenti uterusdan başlar ve inguinal kanal boyunca seyredip labia majora'larda sonlanır. Embriyolojik olarak, overlerin pelvise inişinden sorumlu olan gubernakulumun distal kısmının farklılaşması sonucunda oluşur. Rotundum ligamenti, erkekteki gubernakulum testisin kadındaki eşdeğeri'dir[3]. Vulvar leiomyom insidansı tam olarak bilinmeyen, nadir görülen benign karakterde, değişik boyutlarda prezente olabilen, solid bir tümördür [4]. Sıklıkla üreme çağında görülmekle birlikte, postmenopozal dönemde de görülebilmektedir. Hastaların çoğu asemptomatiktir. Semptomatik olan hastalar vulvada ele gelen kitle, vulvar ağrı, genital kanama, idrar yapmada zorluk gibi şikayetlerle de sağlık merkezlerine başvurabilirler. Klinik ayırıcı tanıda fibromlar, lipomlar, angiofibromlar, lenfangiomalar, granüler hücreli myeloblastomalar (Schwannoma), Nuck kanalı kistleri, bartholin kistleri düşülmelidir[5, 6].

Nadir olmakla birlikte, uluslararası literatürde vulvar leiomyoma olguları bildirilmiştir. Youssef ve arkadaşlarının bildirdiği 39 yaşındaki bir olguda, vulvada saptanan, 4 yılda yaklaşık 3 cm'den 15 cm'e kadar büyüyen kitlenin histopatolojik incelemesi vulvar leiomyom olarak bildirilmiştir[7]. Levy ve arkadaşlarının sunduğu iki olgu sunumunda bartholin kisti ön tanısıyla iki hastaya kist aspirasyonu denenmiş ve başarısız olunması üzerine kitleler total olarak eksize edilmiştir. Histopatolojik incelemeler sonucunda bir vakada vulvar leiomyom, diğer vakada vulvar leiomyosarkom olarak raporlanmıştır[8].

Vulvar kitlelerde benign/malign ayrımı yapmak zordur. Bu nedenle lokal eksizeyon ve patolojik tanı önemlidir. Klinik olarak vulvar leiomyoma ile uyumlu kitleler için, Nielsen ve ark. 25 vakalık çalışmalarında olguları leiomyom veya leiomyosarkom yönünden ayırt etmek amacıyla dört kriter belirlemişlerdir: 1) 5 cm'den büyük tümör 2) çevre dokulara infiltrasyon 3) 10 büyük büyütme mikroskop sahasında >5 mitotik aktivite 4) Orta veya ciddi derecede sitolojik atipi. Bu kriterlerden herhangi üçünü içeren olgular leiomyosarkom, ikisini içeren olgular atipik myom, birini içeren olgular ise leiomyom olarak değerlendirilmiştir[5]. Bu yazıda sunulan olguda vulvar kitle 5 cm' den büyük olduğundan, bu dört kriterden bir tanesini içermekte olup leiomyom olarak değerlendirilmiştir.

Özetle, vulva lezyonları arasında vulvar myomlar çok nadir yer almalarına karşın, ayırıcı tanıda düşünülmesi gereken oluşumlardır. Vulvadaki kitlelerde öncelikle mümkünse benign/malign ayrımı yapılması, kesin tanı konulması sonrasında uygun tedavinin belirlenip nüks açısından takip edilmesi önemlidir.

#### Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

#### Kaynaklar

1. Zhou J, Ha BK, Schubeck D, Chung-Park M. Myxoid epithelioid leiomyoma of the vulva: a case report. *Gynecol Oncol* 2006;103(1):342-5.
2. Buttram VC, Jr., Reiter RC. Uterine leiomyomata: etiology, symptomatology, and management. *Fertility Steril* 1981;36(4):433-45.
3. Warshauer DM, Mandel SR. Leiomyoma of the extraperitoneal round ligament: CT demonstration. *Clin Imaging* 1999;23(6):375-6.
4. Fasih N, Prasad Shanbhogue AK, Macdonald DB, Fraser-Hill MA, Papadatos D, Kielar AZ, et al. Leiomyomas beyond the uterus: unusual locations, rare manifestations. *Radiographics* 2008;28(7):1931-48.
5. Nielsen GP, Rosenberg AE, Koerner FC, Young RH, Scully RE. Smooth-muscle tumors of the vulva. A clinicopathological study of 25 cases and review of the literature. *Am J Surg Pathol* 1996;20(7):779-93.
6. Nucci MR, Granter SR, Fletcher CD. Cellular angiofibroma: a benign neoplasm distinct from angiofibroblastoma and spindle cell lipoma. *Am J Surg Pathol* 1997;21(6):636-44.
7. Youssef A, Neji K, M'Barki M, Ben Amara F, Malek M, Rezig H. Leiomyoma of the vulva. *Tunis Med* 2013;91(1):78-80.
8. Levy RA, Winham WM, Bryant CS, Quick CM. Smooth muscle neoplasms of the vulva masquerading as Bartholin gland duct cysts. *Proc (Bayl Univ Med Cent)* 2014;27(1):25-7.

#### How to cite this article:

Adigüzel Fİ, Adigüzel C, Mısırlıoğlu S, Seyfettinoğlu S, Demirtürk P. Vulvar Leiomyoma: Report of a Rare Case and Review of the Literature. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 502-4.



## Giant Retroperitoneal Liposarcoma with Multi-Organ Involvement

### Multiorgan Tutulumu Gösteren Dev Retroperitoneal Liposarkom

Dev Retroperitoneal Liposarkom / Giant Retroperitoneal Liposarcoma

Mustafa Ugur<sup>1</sup>, Cem Oruc<sup>1</sup>, Seckin Akkucuk<sup>1</sup>, Yavuz Savaş Koca<sup>2</sup>, Nesrin Atcı<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Department of General Surgery, Medicine School of Mustafa Kemal University, Hatay,

<sup>2</sup>Department of General Surgery, Medicine School of Suleyman Demirel University, Isparta,

<sup>3</sup>Department of Radiodiagnostic, Medicine School of Mustafa Kemal University, Hatay, Turkey

#### Özet

Retroperitoneal liposarkom ender görülen, kötü prognozlu bir tümördür. Spesifik bir bulgu vermemesi nedeniyle kitleler büyük boyutlara ulaşana kadar tanı gecikmektedir. Cerrahi tedavi başlıca tedavi seçeneğidir. Dev liposarkomlu hastalar da çok sayıda organ rezeksiyonu gerekebilir ve kitlenin tam çıkarılmaması lokal nükslerin sebebidir. Medikal tedavi ise tartışmalıdır. Bu yazıda 2 yıl önce retroperitoneal kitle saptanarak ameliyat önerilen, ancak hasta tarafından ameliyat kabul edilmediği için dev boyutlara ulaşarak sol böbrek, sol adrenal bez ve sol kolon mezosunu tutan liposarkom olgusu sunuldu. Tümörün dev boyutlarda olması ve birçok organı tutmasının rezeksiyon açısından kontrendikasyon oluşturmadığını ve rezeksiyonun hastanın yaşam kalitesini arttırdığını göstermek için bu olguyu tartıştık.

#### Anahtar Kelimeler

Retroperitoneal Liposarkom; Yumuşak Doku Tümörleri; Cerrahi Tedavi

#### Abstract

Retroperitoneal liposarcomas are very rare tumors with poor prognosis. The diagnosis can be delayed since there are no specific symptoms and findings. Surgical resection is the primary treatment choice. Obtaining negative surgical margins should be the primary aim. Multiple organ resections may be essential in cases with huge liposarcoma and incomplete resection leads to local recurrences. There is still an ongoing controversy in the medical treatment of liposarcoma. In this study we presented a patient with liposarcoma who was advised for surgery due to retroperitoneal mass 2 years ago but refused so the mass grew to a huge size invading left kidney, left adrenal gland and left mesocolon. We aimed to point out organ invasion and huge masses of liposarcoma are not contraindications for resection, and resections of these huge tumors improve quality of life. All retroperitoneal masses should be aggressively excised and patients should be closely followed up.

#### Keywords

Retroperitoneal Liposarcoma; Soft Tissue Sarcomas; Surgical Treatment

DOI: 10.4328/JCAM.3352

Received: 01.03.2015 Accepted: 19.03.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 505-7

Corresponding Author: Mustafa Ugur, Department of General Surgery, Medicine Faculty of Mustafa Kemal University, Hatay, Turkey.

T.: +90 3262291000 F.: +90 32624556544 GSM: +905053463209 E-Mail: drmustafaugur@gmail.com

## Introduction

Retroperitoneal liposarcomas make up 0.1% to 0.2% of all malignant tumors and 15% of all sarcomas. Liposarcomas are the most common type of retroperitoneal sarcomas (41%). It is followed by leiomyosarcomas, malignant fibrous histiocytomas, fibrosarcomas and other undifferentiated sarcomas [1].

Retroperitoneal masses present with nonspecific findings. This delays diagnosis until the tumor reaches enormous sizes. For diagnosis, computerized tomography and magnetic resonance imaging gives information about the location and structure of the mass. Surgical excision is the golden standard for treatment [2,3].

In this study we presented a retroperitoneal liposarcoma case in which the patient was diagnosed as retroperitoneal mass and advised for surgery but refused to be operated so the mass grew to a huge size. The patient who could not walk and meet her own needs due to giant mass started walking and taking care of himself without any help after the surgery.

## Case Report

History of 56 years old female patient hospitalized in our clinic with the diagnosis of giant retroperitoneal mass revealed that 2 years ago she attended a medical facility with abdominal pain and abdominal distention complaints where a retroperitoneal mass of 5 cm of size have been found and she was advised to be operated. But at that time by own will, the patient did not accept to be operated. She attended our clinic as the mass continued growing, and made the patient unable to walk and meet her own needs for the last 6 months.

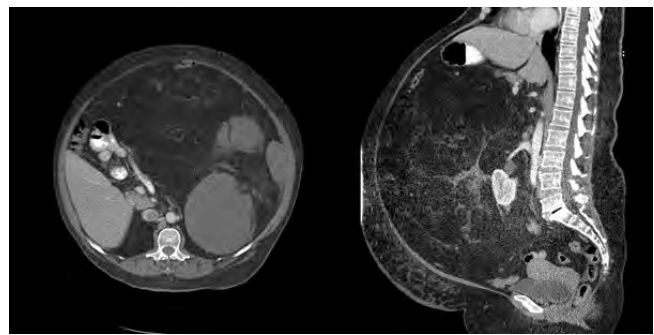
Physical examination revealed severely distended abdomen (Picture 1). The patient who was unable to stand up and walk



Picture 1. Preoperative view of a patient with giant retroperitoneal sarcoma

due to the mass had sensitivity in all abdominal quadrants. Defense and rebound were not seen. Biochemical studies and complete blood count were normal.

Abdominal tomography showed gigantic mass lesion, localized in the left flank, neighbored by multiple solid mass lesions with the largest being 55x32 cm in size, accompanied by increase in surrounding fat tissue and dense inhomogenities at the mesentery and displacing all abdominal organs to the right side (Picture 2). Additionally solid mass lesions of varying sizes and similar characters have been seen neighboring the lower lobe of the left kidney and inside the increased fat tissue (retroperitoneal malignant tumor? liposarcoma?). Thorax tomography did not reveal any pathology.



Picture 2. Abdominal computed tomography shows a heterogeneous retroperitoneal mass occupying the entire abdominal cavity

After completion of pre-operative preparations, the patient was operated. Due to the effect of giant retroperitoneal mass, right sided displacement of intraabdominal organs were seen. The mass had completely surrounded the left kidney and invaded the left mesocolon. Whereupon, excision of the mass, left hemicolectomy including its mesenter and left radical nephrectomy have been performed. The continuity of colon has been provided by end to end anastomosis (Picture 3).



Picture 3. Postoperative view of the specimen. Left colon is marked with arrow sign. Left kidney and adrenal gland are surrounded by the mass.

After a short time following the surgery, the patient started to walk and meet her own needs without any assistance. The patient who did not develop any post-operative complications was discharged.

The patient's pathology results showed a dedifferentiated liposarcoma with weight of 23 kg and dimensions of 60x40x27 cm. Tumor infiltration to left kidney capsule and the mesenter of left colon has been reported.

During controls at post-operative 3rd, 6th and 12th months, recurrence has not been seen.

## Discussion

Primary retroperitoneal tumors show poor prognosis. 5 years survival rates of 5-20% have increased up to 65% with wide resections and negative surgical margins during recent years [4]. So the aim of the treatment of retroperitoneal sarcomas should be providing negative surgical margins. Difficulties of this aim are; the complexity of retroperitoneal anatomy, large tumor size and invasion of some vital organs [5]. In our case, despite gigantic size and invasion of left mesocolon, left kidney and left adrenal gland of the tumor; we tried to reach negative surgical margins so the mass with all the organs invaded have

been excised.

For prognosis; tumor size greater than 10 cm, patient older than 50 years of age, resection margins and local recurrence are important factors to determine the survival of the patient. Local recurrence depends on; large tumor size during diagnosis, inability to provide negative surgical margins and limited effectiveness of chemotherapy and radiotherapy. For cases with local recurrence, surgery and radiotherapy are advised [3,4]. In our case despite having all the negative conditions for local recurrence; during 1 year of follow-up, recurrence has not been encountered. And this proves the importance of negative surgical margins once more.

For retroperitoneal tumors, surgical excision is the most important treatment method for prolonging the survival of the patient. Also as it was with this case, retroperitoneal masses can cause advance disruption in the quality of life by preventing the patients to walk and meet their own needs. Surgical treatment can be the best option for these patients. Consequently, all retroperitoneal masses should be aggressively excised and patients should be closely followed up using techniques like computerized tomography or magnetic resonance imaging for local recurrences.

#### **Competing interests**

The authors declare that they have no competing interests.

#### **References**

1. Morandeira A, Prieto J, Poves I, Sánchez Cano JJ, Díaz C, Baeta E. Giant retroperitoneal sarcoma. *Can J Surg* 2008;51(4):79–80.
2. Leão P, Vilaça S, Oliveira M, Falcão J. Giant recurrent retroperitoneal liposarcoma initially presenting as inguinal hernia: Review of literature. *Int J Surg Case Rep* 2012;3(3):103–6.
3. Herrera-Gómez A, Ortega-Gutiérrez C, Betancourt AM, Luna-Ortiz K. Giant retroperitoneal liposarcoma. *World J Surg Oncol* 2008;31(6):115.
4. Lewis JJ, Leung D, Woodruff JM, Brennan MF. Retroperitoneal soft-tissue sarcoma: analysis of 500 patients treated and followed at a single institution. *Ann Surg* 1998;228(3):355-65.
5. Erzen D, Sencar M, Novak J. Retroperitoneal sarcoma: 25 years of experience with aggressive surgical treatment at the Institute of Oncology, Ljubljana. *J Surg Oncol* 2005;91(1):1-9.

#### **How to cite this article:**

Ugur M, Oruc C, Akkucuk S, Koca YS, Atcı N. Giant Retroperitoneal Liposarcoma with Multi-Organ Involvement: A Case Report. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 505-7.



## Colon Perforations Causing Morgagni Hernia Case

### Kolon Perforasyonuna Neden Olan Morgagni Hernisi Olgusu

Morgagni Hernisi / Morgagni Hernia

Mustafa Uğur<sup>1</sup>, Seçkin Akkücü<sup>1</sup>, Cem Oruç<sup>1</sup>, Alperen Kayalı<sup>2</sup>, Akın Aydoğan<sup>1</sup>  
<sup>1</sup>Genel Cerrahi Anabilim Dalı, <sup>2</sup>Radyodiyagnostik Anabilim Dalı,  
Mustafa Kemal Üniversitesi Tıp Fakültesi, Hatay, Türkiye

Bu yazının özeti 28 Ekim-1 Kasım 2015' te yapılacak olan 10. Ulusal Travma ve Acil Cerrahi Kongresi'nde poster olarak sunulmak üzere gönderilmiştir.

#### Özet

Diyafragmanın sternal ve kostal bölümlerinde birleşme anomalisi sonucu gelişen defekten karın içi organların toraks içine herniasyonu Morgagni hernisi olarak bilinmektedir. Bu defekte sahip kişiler genellikle asemptomatik olarak hayatlarını sürdürüyor olsa da nadiren barsaklarda obstrüksiyon, inkarserasyon ve strangülasyon ortaya çıkabilir. Seksen üç yaşında kadın hasta kliniğimize akut karın bulgularıyla başvurdu. Ameliyat öncesi torako-abdominal bilgisayarlı tomografi ile Morgagni hernisi tanısı konuldu. Bu çalışmada literatür eşliğinde Morgagni Hernisine yaklaşımımızı sunmayı amaçladık.

#### Anahtar Kelimeler

Morgagni Hernisi; Kolon Perforasyonu; Yaşlı Hasta

#### Abstract

Herniation of the intraabdominal organs through a diaphragmatic defect that occurs due to the joining anomaly of the sternal and costal segments of diaphragm is known as Morgagni Hernia. Although most of the patients with Morgagni Hernia are asymptomatic, intestinal obstruction, incarceration and strangulation can rarely occur. An 83 years old female patient admitted with acute abdomen to our clinic. Morgagni hernia was detected with preoperative thoracic and abdominal computed tomography. We aimed to present our management in Morgagni Hernia in this study.

#### Keywords

Morgagni Hernia; Colon Perforation; Elderly Patients

DOI: 10.4328/JCAM.3333

Received: 06.03.2015 Accepted: 23.03.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 508-10

Corresponding Author: Mustafa Ugur, Genel Cerrahi Anabilim Dalı, Mustafa Kemal Üniversitesi Tıp Fakültesi, 31100, Serinyol, Hatay, Türkiye.

GSM: +905053463209 T.: +90 3262291000 F.: +90 32624556544 E-Mail: drmustafaugur@gmail.com



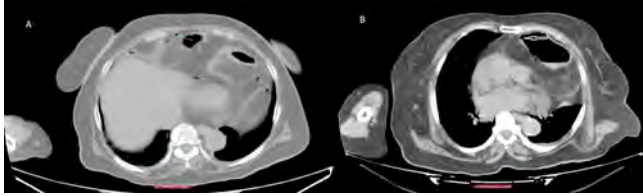
## Giriş

Barsakların karın içine göçü ve diyafragmanın oluşumu embriyoner dönemin 3-12. haftaları arasında gerçekleşir. Bu dönemde meydana gelen gecikme veya farklı gelişme konjenital diyafragma hernilerine neden olur. Defekt diyafragmanın anterior-medial bölümünde meydana gelirse Morgagni hernisi olarak adlandırılır. Diyafragmanın sternal ve kostal bölümlerinde birleşme anomalisi sonucu gelişir [1].

Morgagni hernisi bulunan insanların çoğunluğu asemptomatik olarak hayatlarını sürdürürken nadiren herniye olan organa bağlı olarak obstrüksiyon, inkarasyon gibi farklı klinik durumlarla karşılaşılabilmektedir [2]. Bu çalışmada akut karın tablosuyla başvuru, ameliyatta diyafragma hernisine bağlı olarak kolon strangülasyonu ve perforasyonu gelişen bir olgu klinik, laboratuvar ve cerrahi bulguları eşliğinde sunulmuştur.

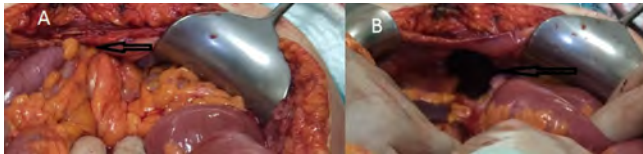
## Olgu Sunumu

Hastanemiz acil servisine 83 yaşında kadın hasta karın tüm kadranslarda üç gün önce başlayan ve giderek şiddetlenen ağrı şikâyetiyle başvurdu. Ağrıdan dolayı solunum sıkıntısı geliştiğini belirtti. Fizik incelemede genel durumu orta, karın distandı ve tüm kadranslarda hassasiyet, defans mevcuttu. Laboratuvar incelemesinde kreatinin 3,0 mg/dl, lökosit 18 000 /mm<sup>3</sup> olarak ölçüldü. Torako-abdominal tomografide çekum ve sağ kolonun dilate olduğu, transvers kolonun retrosternal alanda diyafragma-daki bir defekten toraks içine herniye olduğu görüldü (Resim 1A). Karın içinde serbest havaya uyumlu dansiteler izlendi (Resim 1B). Hastanın kreatinin değerinin yüksek olması ve dehid-



Resim 1. Retrosternal alandaki diyafragmatik defektten herniye olmuş kolon segmenti tomografik görüntüsü (Ok) (A). Karın içinde serbest hava dansiteleri (Ok) (B).

ratasyon bulguları gözlemlendiğinden sıvı- elektrolit tedavisi başlandı. Başvurudan 3 saat sonra acil ameliyata alındı. Ameliyatta transvers kolonun bir segmentinin retrosternal alandaki 6x5 santimetre boyutlarındaki diyafragma defektinden herniye olduğu saptandı (Resim 2A, 2B). Çekum ve sağ kolonun ileri dere-



Resim 2. Retrosternal alandaki diyafragmatik defektten herniye olmuş kolon segmentinin ameliyattaki görüntüsü (Ok) (A). Retrosternal diyafragmatik defekt (Ok) (2).

cede dilate olduğu, çekum duvarında iskemi ve perforasyon geliştiği görüldü. Perforasyon alanına omentum yapıştığından karın içinde kirlenme olmamıştı. Kolon diyafragma-daki defektten çekilerek karın içine alındı. Defekt sütüre edilerek kapatıldı. Çekum duvarı iskemik görüldüğünden sağ hemikolektomi ve ileotransversostomi yapıldı. Takiplerinde sorun gelişmeyen hasta 7. günde taburcu edildi.

## Tartışma

Konjenital diyafragma hernileri diyafragma-daki gelişimsel anomalilerine bağlı olarak gelişen ve abdominal içeriğin toraks içine herniasyonu ile karakterize nadir görülen anomalilerdir. En yaygın görülen iki tipi anterior diyafragma-daki defektlerden gelişen Morgagni hernisi ve posterolateral duvar defektlerinden gelişen Bochdalek hernisidir.

Anterior diyafragmatik herniasyon genellikle retrosternal alanda ve sağ tarafta görülürler. İlk kez 1769'de Morgagni tarafından İtalya'da kolonun diyafragmatik herniasyonu sonrasında nekroz gelişerek ölen bir hastanın otopsisinde tanımlanmıştır [2,3].

Yetişkinlerde Morgagni hernilerinin büyük çoğunluğu asemptomatiktir ya da bulantı, kusma, karında distansiyon, disfaji gibi nonspesifik şikâyetlerden yakınır. Tüm tedavi edilen diyafragma hernilerinin sadece %3'ünü yetişkin yaş grubundaki insanlar oluşturur. Kadınlarda erkeklere göre daha sık görülürken; %90'ı sağ tarafta; %8'i iki yönlü; %2'si solda gelişir. Sol tarafta perikard bulunması nedeniyle daha az herni gelişimi olmaktadır. Daha az sayıda hastada barsak obstrüksiyonu ya da strangülasyon gibi herniasyon bulguları ile başvurur. Bu hastalarda genellikle transvers kolon, karaciğer, omentum nadiren de ince barsaklar ya da mide herniasyona uğrar [4,5].

Sunduğumuz hasta 83 yaşında kadın hastaydı. Hastanın ayrıntılı hikayesinde yıllardır karında şişkinlik, hafif şiddette kendiliğinden geçen karın ağrısı atakları olduğu öğrenildi. Son karın ağrısı atağının ise kendiliğinden geçmediği aksine giderek şiddetlendiği ve solunum sıkıntısına sebep olduğu anlaşıldı. Hasta son 3 gündür gaz ve gayita çıkışı olmadığını belirtti Fizik incelemede ise akut karın bulguları mevcuttu.

Morgagni herni tanısında posterior-anterior akciğer grafisi fayda sağlayabilir. Bu nedenle radyolojik tetkik olarak öncelikle posterior-anterior akciğer grafisi çekilmelidir. Toraks içine herniye olmuş barsak anslarına ait hava-sıvı seviyeleri görülebilir. Tanıdan şüphelenildiğinde yada ek inceleme gereken durumlarda torako-abdominal bilgisayarlı tomografi çekilmelidir. Bu tetkik diyafragma hernisini ve herniye olan organları genellikle gösterir. Herni kesesi içinde sadece omentumun bulunduğu durumlarda ise yumuşak dokuları göstermede daha üstün olan magnetik rezonans görüntüleme tanı koymada daha faydalıdır [6].

Hastamıza öncelikle posterior-anterior akciğer grafisi çekildi. Ancak hastanın fazla kilolu olması ve çekim esnasında uyum gösterememesi nedeniyle tanı koymamızda faydalı olmadı. Bunun üzerine torako-abdominal tomografi çekildi. Bu incelemede retrosternal diyafragmatik defektten transvers kolonun herniye olduğu ve karın içinde serbest hava dansiteleri görüldü. Böylece hem diyafragma herni tanısı hemde karın içi lümenli organ perforasyonu tanısı preoperatif olarak konuldu.

Morgagni hernisi tanısı konulmuş asemptomatik hastalarda cerrahi tedavi yapılması hakkında henüz tam bir fikir birliği olmamasına rağmen semptomatik olanlar cerrahi tedaviden fayda görmektedir. Burada ki tartışma ise bu tip hernilere torakal mı yoksa abdominal yoldan mı yaklaşılacağıdır. Gerçekte ise her iki yolun hem avantaj hemde dezavantajları bulunmaktadır. Abdominal yolun başlıca avantajları herniye olan organların iskemi, nekroz, perforasyon açısından değerlendirilebilmesi, daha kolay redüksiyon yapılabilmesi iken, dezavantajları ventral her-

ni olasılığı, hastanede uzun yatış süresi olarak sayılabilir. Torakotominin avantajları daha kolay onarım sağlaması ve torakal yapışıklıkların daha kolay açılmasıdır. Ameliyat öncesi tanı konulan semptomatik hastalarda karın içi organların değerlendirilmesi gerektiğinden transabdominal yol tercih edilmelidir. Son dekatlarda laparoskopik ve torakoskopik onarımlar giderek artan sıklıkta yapılmaktadır. Bu yöntemlerin avantajları hastanede daha kısa yatış süresi, daha az komplikasyon ve daha az ağrı olmasıdır [7,8].

Sunduğumuz hastada akut karın bulguları bulunduğundan abdominal yol tercih edildi. Karın içi gözlemede transvers kolonun herniye olduğu, çekumda ise iskemik renk değişikliği olduğu ve bir noktadan perfore olduğu görüldü. Perforasyon alanına omentum yapıştığından karın içi kirlenme olmamıştı. Hastaya sağ hemikolektomi ve ileotransversostomi ameliyatı yapıldı. Retrospernal defekt ise suture edilerek kapatıldı.

### Sonuç

Yetişkinlerde nadir görülen semptomatik Morgagni hernisi karın içi organlarda iskemi, nekroz ve perforasyona neden olabilir. Torako-abdominal bilgisayarlı tomografi ameliyat öncesi tanı koymada fayda sağlar. Akut karının nadir bir nedeni olarak Morgagni hernileri de akılda bulundurulmalıdır.

### Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

### Kaynaklar

1. Vassileva CM, Shabosky J, Boley T, Hazelrigg S. Morgagni hernia presenting as a right middle lobe compression. *Ann Thorac Cardiovasc Surg* 2012;18(1):79-81.
2. Nasr A, Fecteau A. Foramen of Morgagni hernia: presentation and treatment. *Thorac Surg Clin* 2009;19(4):463-8.
3. Menditto VG, Cavicchi A, Marchetti G, Marziani M, Braccioni F, Polonara S. Hernia of Morgagni and mediastinal lipoma: a case report. *Ann Thorac Cardiovasc Surg* 2011;17(1):77-80.
4. Loong TP, Kocher HM. Clinical presentation and operative repair of hernia of Morgagni. *Postgrad Med J* 2005;81(951):41-4.
5. Pousios D, Panagiotopoulos N, Piyis A, Gourgiotis S. Transthoracic repair of asymptomatic morgagni hernia in an adult. *Indian J Surg* 2012;74(5):431-3.
6. Akar E. Morgagni Hernili Hastaların Retrospektif Değerlendirilmesi. *J Clin Anal Med* 2012;3(3): 331-3.
7. Kılıçgün A, Hasdemir AO, Murat Bozgeyik, Çakmaz R, Çöl C. Solunum Arrestine Neden Olan Morgagni Hernisi Olgusu. *J Clin Anal Med* 2011;2(2):52-4.
8. Kiliç D, Nadir A, Döner E, Kavukçu S, Akal M, Ozdemir N, et al. Transthoracic approach in surgical management of Morgagni hernia. *Eur J Cardiothorac Surg* 2001; 20: 1016-19.

### How to cite this article:

Uğur M, Akkücüçük S, Oruç C, Kayalı A, Aydoğan A. Colon Perforations Causing Morgagni Hernia Case. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 508-10.



## Triple Primary Malignancies of Thyroid and Larynx in a Case of Retrosternal Guatr

### Retrosternal Guatrlı Bir Olguda Tiroid ve Larinksin Üçlü Primer Malignitesi

Üçlü Primer Malignite / Triple Primary Malignancies

Seval Erhamamcı<sup>1</sup>, Mehmet Reyhan<sup>1</sup>, Nazım Emrah Kocer<sup>2</sup>, Tuba Canpolat<sup>2</sup>, Naime Altinkaya<sup>3</sup>  
<sup>1</sup>Department of Nuclear Medicine, <sup>2</sup>Department of Pathology, <sup>3</sup>Department of Radiology,  
Faculty of Medicine, Baskent University, Ankara, Turkey

#### Özet

Tiroid bezi ve larinks baş boyun kanserlerinin en sık lokalizasyonudur. Ancak, tiroid ve larinks kanserlerinin birlikte görülmesi nadirdir ve literatürde sınırlı sayıda vaka bildirilmiştir. Bu yazıda, retrosternal guatrlı bir olguda eşzamanlı papiller ve foliküler tiroid kanseriyle birlikte metakron larinks squamöz hücreli karsinomlu nadir bir kombinasyonu sunduk. 71 yaşındaki erkek olguya retrosternal guatr nedeniyle total tiroidektomi yapıldı. Histolojik inceleme aynı lobun iki farklı odağında papiller ve foliküler tiroid karsinomunu gösterdi. Hasta eşzamanlı tiroid karsinomu tanısından 16 ay sonra ses kısıklığı şikayeti ile başvurdu, biyopsi ile larinks squamöz hücreli karsinom tanısı aldı, bilateral boyun diseksiyonu ile birlikte total larenjektomi ve ardından kemoradyoterapi uygulandı. Hasta şu anda bu üç kanserden tam remisyonadadır.

#### Anahtar Kelimeler

Foliküler Tiroid Karsinomu; Papiller Tiroid Karsinomu; Larinks Karsinomu; Çoklu Primer Malignite

#### Abstract

The thyroid gland and larynx are the most common sites for head and neck cancers. However, the co-existence of thyroid and laryngeal tumors are rare, and there have been limited reports in the literature. In this paper, we present an unusual combination of simultaneous papillary and follicular thyroid carcinoma associated with metachronous laryngeal squamous cell carcinoma in a case with retrosternal guatr. A 71 year-old man who had undergone a total thyroidectomy due to a retrosternal guatr. Histological examination revealed papillary thyroid carcinoma and follicular thyroid carcinoma in two separate foci of the same thyroid lobe. Sixteen months after the diagnosis simultaneous thyroid carcinomas, the patient was admitted with complained of hoarseness, diagnosed laryngeal squamous cell carcinoma by biopsy, and underwent total laryngectomy with bilateral neck dissections and following chemoradiotherapy. The patient is currently in complete remission from these triple cancers.

#### Keywords

Follicular Thyroid Carcinoma; Papillary Thyroid Carcinoma; Laryngeal Carcinoma; Multiple Primary Carcinoma

DOI: 10.4328/JCAM.3348

Received: 27.02.2015 Accepted: 23.03.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 511-4

Corresponding Author: Seval Erhamamcı, Baskent University Faculty of Medicine, Saray Street No. 1, 42080: Selcuklu, Konya, Turkey.

T.: +90 3322570606 F.: +90 3322570637 E-Mail: sevaler@yahoo.com

## Introduction

The thyroid gland and larynx are the most common sites for head and neck malignancies. The presence of multiple primary cancers in the head and neck region are not uncommon because the patients with upper aerodigestive tract squamous cell carcinomas are generally smokers and have a high risk of developing other cancers in the smoke-exposed mucosa simultaneously or subsequently. However, the co-existence of thyroid and laryngeal tumors rare event, and small series of thyroid carcinoma associated with laryngeal lesions have been reported in the literature [1-6]. Thyroid carcinomas occurring as a second primary malignancy (SPM) have been reported to be incidentally in 0.5% to 3% of surgeries for another primary head and neck cancer of non-thyroid origin [1]. Increasing incidence and good prognosis of thyroid cancer have led to increased the development of SPM [2]. Second primary cancers in patients with differentiated thyroid carcinoma (DTC), especially laryngeal carcinoma are relatively rare, and limited number of cases have been described [2-6]. A triple presentation of thyroid and laryngeal malignancies in the same patient is also very rare.

Various combinations of thyroid carcinomas has been reported [7-8]. The clinical information on simultaneous occurrence of follicular thyroid carcinoma (FTC) and papillary thyroid carcinoma (PTC) is insufficient in the literature, because these two tumors are traditionally reported together as DTC. Concurrent presence of PTC and FTC has been published limitedly as case reports although one study has been presented recently [7].

In this paper, we present an unusual combination of simultaneous PTC/FTC associated with laryngeal squamous cell carcinoma in a case with retrosternal guatr and also carry out a review of the literature.

## Case Report

A 70-year-old male patient presented with the history of swelling in front of the neck and dyspnea. Computed tomography of the neck demonstrated a retrosternal thyroid nodule in the left lob in size of about 7 cm, displacing the trachea and esophagus on right side of patient's (Fig. 1). The patient had a 44-year

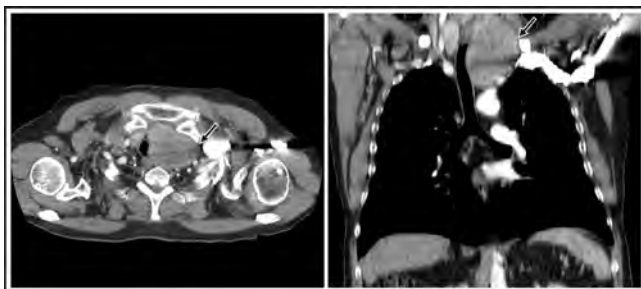


Figure 1. Contrast-enhance computed tomography findings axial and coronal MPR image demonstrated a retrosternal thyroid nodule in the left lob in size of about 7 cm, displacing the trachea and esophagus to the patient's right (arrow).

history of smoking cigarettes and of no alcohol consumption. The patient displayed subclinical hyperthyroidism as evidenced normal free triiodothyronine and free thyroxine, and low thyroid stimulating hormone (TSH) (0.146  $\mu$ U/mL, normal range: 0.36-4.94) in a serum thyroid function test. Haematological and biochemical investigations were within normal limits. The patient underwent a bilateral total thyroidectomy. Histo-

logical examination revealed PTC (Fig. 2A) in size of 1.2 cm with another focus showing features of FTC (Fig. 2B) in size of 7 cm

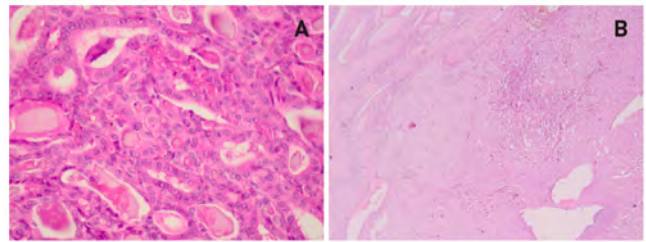


Figure 2. Papillary carcinoma (A): The microphotograph reveals follicles composed of overlapping cells with ovoid vesicular nuclei. Nuclear grooves and intranuclear pseudoinclusions are present. Note the presence of dense and scalloped colloid in the elongated follicles lümen (hematoxylin and eosin stain, original magnification x400). Follicular carcinoma (B): Oncocytic cells invading throughout the fibrous capsule (hematoxylin and eosin stain, original magnification x400).

in the left lobe. The FTC and PTC components were separated by normal thyroid tissue. FTC was defined Hurthle-cell variant and classified as minimally invasive. The patient presented no lymph node or distant metastases at the time of initial presentation.

RAI treatment was carried out at a dose of 100 mCi (3700 MBq) for the ablation of residual thyroid tissue. A post-therapy scan was obtained 10 days after RAI therapy (Fig 3A). After RAI ablation, the patient would have a whole body scan (WBS) at 6th months to confirm the success of ablation (Fig 3B). The patient

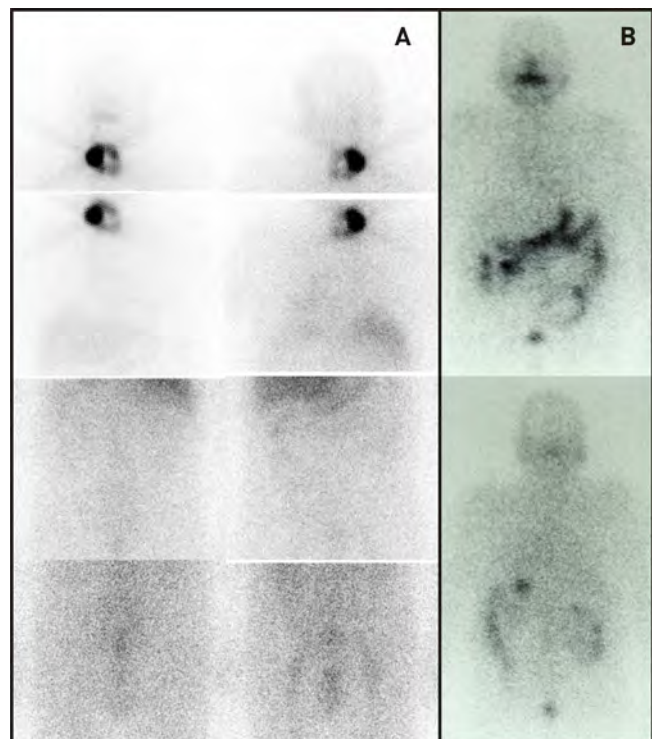


Figure 3. After RAI therapy, a post-therapy scan at 10 days showed residual thyroid tissue (A) and whole body scan at 6th months confirmed the success of ablation (B).

received suppressive doses of thyroxine to maintain serum TSH concentration suppressed to undetectable levels (<0.15 mIU/l) and was follow-up at 6-and 12-months intervals. Patient was out-patiently monitored annually in accordance with a standardized follow-up protocol including clinical examination, ultrasonography of the neck and biochemical measurements of

thyroglobulin levels.

Sixteen months after the diagnosis of simultaneous thyroid carcinomas, the patient complained of hoarseness. Computed tomography of the neck demonstrated a mass in the the right side of larynx, infiltrating into both the vocal cords, and right thyroid, cricoid and aritenoid cartilages (Fig. 4). Biopsy of the

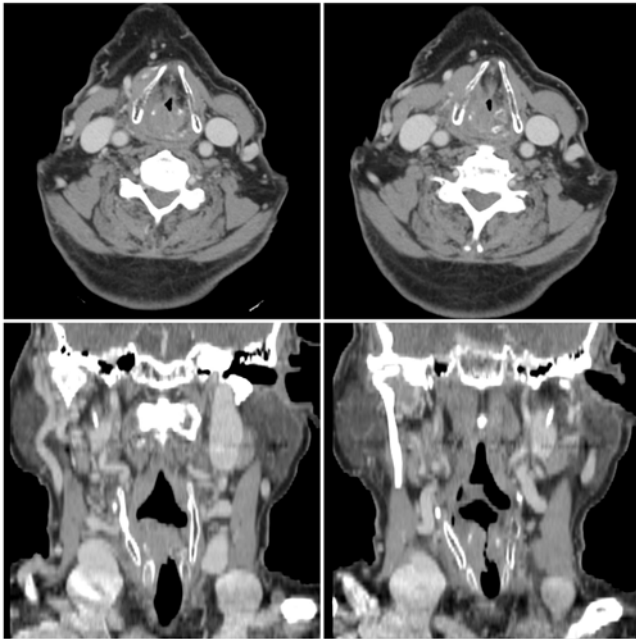


Figure 4. Contrast-enhance computed tomography of the neck demonstrated a mass in the the right side of larynx, infiltrating into both the vocal cords, and right thyroid, cricoid and aritenoid cartilages (arrows).

larynx revealed the presence of the squamous cell carcinoma. The patient underwent total laryngectomy with bilateral neck dissections for a pathological stage T4aN0M0 squamous cell carcinoma (SCC) of the larynx (Fig. 5). Histopathologic exami-

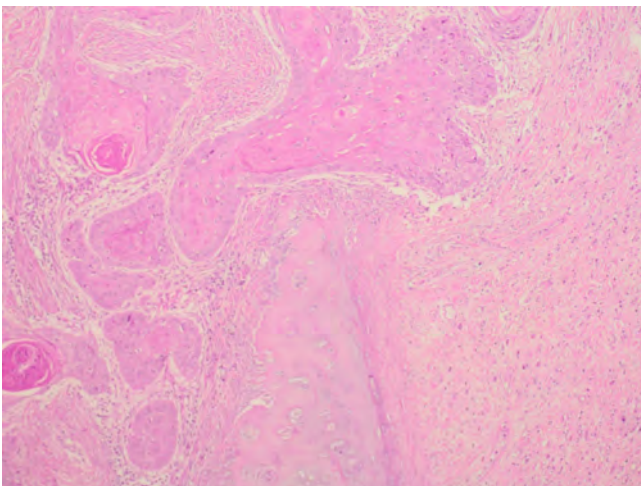


Figure 5. Squamous cell carcinoma infiltrating the epiglott cartilage (hematoxylin and eosin stain, original magnification x100).

nation of the surgical specimen revealed that the surgical margins were negative, invasion of the thyroid cartilages, and no metastases in lymph node.

After the total laryngectomy, a positron emission tomography (PET/CT) whole body scan (Discovery-STE 8; General Electric Medical System, Milwaukee, Wisconsin, USA) was performed to evaluate other possible metastases. No abnormal  $^{18}\text{F}$ -fluoro-

deoxyglucose (FDG) uptake was detected elsewhere in the body, except irregularly increased metabolic activity in the larynx due to surgery (Fig. 6).

The patient underwent chemoradiotherapy. He is currently in complete remission from these cancers.

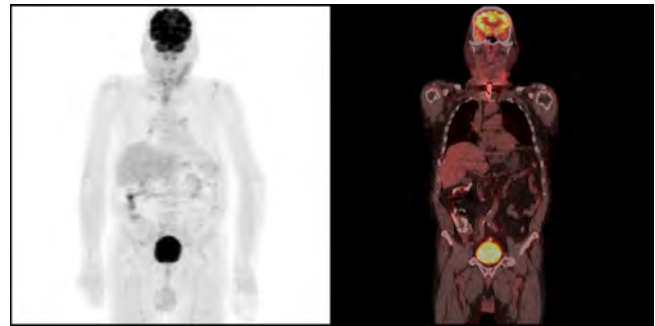


Figure 6. Maximum intensity projection and coronal fusion PET/CT images showed no abnormal FDG uptake elsewhere in the body, except irregularly increased metabolic activity in the larynx due to surgery.

### Discussion

Technical advances in early diagnosis and treatment of cancer, the incidence of multiple primary cancers has recently increased. In patients with thyroid carcinoma, the incidence of synchronous or metachronous multiple primary cancers including head and neck carcinoma and elsewhere in the body (ie, breast, prostate, kidney, brain and CNS, salivary gland, and bone marrow) has increased [2].

Thyroid carcinomas are rare tumors with the range of 1% of all malignancies, but DTC is the most frequent endocrine gland carcinomas. Of the two main subtypes, PTC and FTC account for approximately 90% of cases, derived from the same follicular thyroid cell lineage, had a similar clinical behaviour. Thyroid cancer has been increasing rapidly over recent decades due to increased cervical ultrasound and increased detection in pathological specimens. This increase has been predominantly an increase in PTC, more specifically an increase in papillary thyroid microcarcinoma.

Cases of the simultaneous occurrence of different types of primary thyroid cancer in the same gland have been reported [7,8]. However, there is insufficient clinical information concerning simultaneous existence of FTC and PTC. Only a recent study has been reported that the frequency of concurrent PTC in patients with FTC was 19% [7]. Simultaneous existence of different types of primary thyroid cancer in the same patient have been reported as usually independent and coincidental events [7,8]. Wong et al. reported that one tumor is often discovered primarily in simultaneous thyroid tumors patients, with the second tumor found incidentally after thyroidectomy [8]. In our patient, simultaneous thyroid tumors were discovered incidentally due to the symptoms related to retrosternal guatr.

Upon reviewing the literature, the synchronous or metachronous occurrence of thyroid and laryngeal tumors in the same patients is observed in two main settings: thyroid cancer occurring as the first primary malignancy or SPM. Thyroid carcinoma occurring as a SPM associated with head and neck squamous cell carcinoma is unusual, and can be discovered as palpable thyroid mass during neck surgery, as an occult carcinoma in the thyroid gland removed during laryngectomy or as thyroid can-

cer that is found in lymph nodes of the neck dissection specimen [1].

The prevalence of dual malignancies in patients with DTC was reported to be 0.45-0.5% [3,4]. Okere et al. reported one case of larynx cancer as second primary thyroid carcinoma among 4500 patients with DTC [3]. This case was diagnosed as insular type thyroid carcinoma 19 years after the detection of laryngeal carcinoma. Gandhi et al. reported one case with synchronous thyroid and larynx carcinoma among 8614 patients with DTC [4]. Omur et al. described two cases with concurrent papillary thyroid carcinoma and laryngeal carcinoma among 1680 patients with DTC [5]. In these two cases, thyroid carcinoma was incidentally discovered during the operation performed for laryngeal carcinoma. Verkooijen et al. reported high rates of two or three primary tumors (14.2%, 40 out of 282) in patients with DTC, but none of them had laryngeal carcinoma [6].

Increasing incidence and good prognosis of thyroid cancers have led to concerns about the development of SPM. Previous studies reported that the patients with treated I-131 may face a slightly increased risk of developing a SPM [2]. However, other investigators stated that overall increased incidence of SPM after DTC could be explained by shared genetic or environmental risk factors rather than I-131 radiation effect [6]. In the literature, occurrence of SPN in patients with treated for malignant thyroid carcinomas has been reported [2-6]. Most of SPM are solid tumors, and when nonthyroid cancers are the second tumors, ductal carcinoma of the female breast is the most common [3-6]. Recently, a study reported that the most common sites of SPM are head and neck in men and breasts in women [4]. Most of these tumors have very short detection intervals (including synchronous occurrences), suggesting that therapy with internal radiation was not contributory to the tumor development. Our patient had simultaneous PTC/FTC as a the first primary malignancy and was diagnosed as LSCC 16 months after diagnosis simultaneous thyroid carcinomas. Therefore, in our case, RAI treatment is not related to in the occurrence of LSCC.

The standard treatment for DTC is total or near-total thyroidectomy followed by radioiodine-131 (I-131) ablation therapy for residual or metastatic disease. Differentiated thyroid carcinoma is usually characterized by an indolent course in the majority of patients; 10-year survival rates are approximately 90%. Some reports have indicated that the DTC are related to the prognosis of SPM [5]. Therefore, quick diagnosis and treatment of SPM are essential to the prognosis of patients. The clinical course of DTC has been reported not to be affected by the presence of additional primary tumors [5].

In conclusion, multiple primary malignancies including thyroid and larynx is infrequent, and any reported similar case is of great interest as a guide to better assessment of the outcome of these patients and it is important to understand the causative factors of multiple malignancies.

### Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

### References

1. Gilbert MR, Kim S. Incidental thyroid cancer found during surgery for head and

- neck squamous cell carcinoma. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2012;147(4):647-53.
2. Kim C, Bi X, Pan D, Chen Y, Carling T, Ma S et al. The risk of second cancers after diagnosis of primary thyroid cancer is elevated in thyroid microcarcinomas. *Thyroid* 2013;23(5):575-82.
3. Okere PC, Olusina DB, Shamim SA, Shandra V, Tushar M, Sellam K et al. Pattern of second primary malignancies in thyroid cancer patients. *Niger J Clin Pract* 2013;16(1):96-9.
4. Gandhi S, Abhyankar A, Basu S. Dual malignancies in the setting of differentiated thyroid carcinoma: their synchronous or metachronous nature, impact of radioiodine treatment on occurrence of second malignancy and other associated variables. *Nucl Med Commun* 2014;35(2):205-9.
5. Omür O, Ozcan Z, Yazici B, Akgün A, Oral A, Ozkiliç H. Multiple primary tumors in differentiated thyroid carcinoma and relationship to thyroid cancer outcome. *Endocr J* 2008;55(2):365-72.
6. Verkooijen RB, Smit JW, Romijn JA, Stokkel MP. The incidence of second primary tumors in thyroid cancer patients is increased, but not related to treatment of thyroid cancer. *Eur J Endocrinol* 2006;155(6):801-6.
7. Kim WG, Gong G, Kim EY, Kim TY, Hong SJ, Kim WB et al. Concurrent occurrence of medullary thyroid carcinoma and papillary thyroid carcinoma in the same thyroid should be considered as coincidental. *Clin Endocrinol* 2010;72(2):256-63.
8. Wong RL, Kazaure HS, Roman SA, Sosa JA. Simultaneous medullary and differentiated thyroid cancer: a population-level analysis of an increasingly common entity. *Ann Surg Oncol* 2012;19(8):2635-42.

### How to cite this article:

Erhamamcı S, Reyhan M, Kocer NE, Canpolat T, Altınkaya N. Triple Primary Malignancies of Thyroid and Larynx in a Case of Retrosternal Guatr. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 511-4.



## Insulinoma May Present as Epilepsy: A Case Report

### İnsulinoma, Epilepsi Kliniği ile Presente Olabilir: Bir Vaka Raporu

İnsulinoma ve Epilepsi / Insulinoma and Epilepsy

Halil Murat Şen, Çağdaş Balcı, Adile Özkan, Handan Işın Özışık Karaman  
Nöroloji Ana Bilim Dalı, Çanakkale Onsekiz Mart Üniversitesi Tıp Fakültesi, Çanakkale, Türkiye

#### Özet

İnsülinomaya bağlı gelişen hipoglisemiler epileptik nöbet benzeri klinik bulgularla prezente olabilir ve elektroensefalografi bulguları da epilepsi ile uyumlu olabilir. Bu nedenle insülinoma hastaları senelerce tedaviye dirençli epilepsi nedeni ile takip edilebilmektedir. Bizim vakamız da 20 yaşında kadın hastaydı ve epilepsi nedeni ile takip edilmekteydi. Hastanın takiplerinde kan testlerinde hipoglisemi saptandı ve yapılan incelemelerde hastaya insülinoma tanısı konuldu. Biz de bu vaka-yı özellikle tedaviye dirençli epilepsilerde insülinomanın unutulmaması gereken bir etyolojik neden olduğunu vurgulamak amacıyla sunduk.

#### Anahtar Kelimeler

İnsülinoma; Hipoglisemi; Epilepsi

#### Abstract

Hypoglycemia developing linked to insulinoma may present with clinical findings similar to epileptic seizures and electroencephalography findings may be in accordance with epilepsy. As a result some insulinoma patients are followed as epilepsy resistant to treatment for years. Our case was a 20-year old female patient and was followed for epilepsy. The blood tests indicated hypoglycemia and the result of examination, the patient diagnosis was insulinoma. We present this case with the aim of emphasizing the importance of not forgetting insulinoma as an etiology in epilepsy resistant to treatment.

#### Keywords

Insulinoma; Hypoglycemia; Epilepsy

DOI: 10.4328/JCAM.3373

Received: 07.03.2015 Accepted: 20.03.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 515-7

Corresponding Author: Halil Murat Şen, Nöroloji Ana Bilim Dalı, Çanakkale Onsekiz Mart Üniversitesi Tıp Fakültesi, Terzioğlu Kampüsü, 17000, Çanakkale, Türkiye.  
T.: +90 2862183738 GSM: +905326766455 F.: +90 2862180018 E-Mail: hmuratsen@gmail.com

## Introduction

Insulinoma is generally benign and originates in the pancreatic beta-islet cells. The annual incidence of this frequently-seen pancreatic endocrine tumor is calculated at 0.12-0.4/100,000 [1]. The symptoms of the disease may be multivariate: neuropsychiatric, cardiovascular, and gastrointestinal. Due to the variety of these symptoms and because some initial findings may be mild, diagnosis may be difficult [2]. Central nervous system findings are common in insulinoma and may occur as confusion, agitation, loss of consciousness, transient ischemic attack, psychosis, and epilepsy [1]. Patients with insulinoma may have epileptic seizures during hypoglycemic periods. These patients do not have partial epilepsy in fact but may be misdiagnosed due to clinical characteristics and typical electroencephalography (EEG) abnormalities [2]. As these patients do not have epilepsy in fact, they may be monitored for years for medication-resistant epilepsy [1].

We present this case because of having insulinoma who had been following as epilepsy resistant to antiepileptic treatment for years.

## Case Report

A 20-year-old female patient applied to our clinic with a complaint of unresolved epileptic seizures in spite of anti-epileptic treatment. The patient's complaints began 2 years before with loss of consciousness. After this initial loss of consciousness, her complaints continued in the form of seizure attacks. During these attacks, the patient had disordered consciousness, nonsense gaze, slipping of the eyes, and contractions of the extremities. These episodes generally lasted in 10 minutes and occurred 1 or 2 days per month, and could be repeated several times in the same day. One year after the onset of complaints she received a diagnosis of epilepsy. For 1 year, she used 600 mg/day carbamazepine; however, her complaints continued without change and the patient applied to our clinic due to continued seizures. Brain magnetic resonance imaging (MRI) was normal. EEG showed sharp waves, more obvious especially in the left temporal and parietal regions (Fig. 1). This sharp wave activity frequently spread to all areas of both hemispheres (Fig. 2). Routine blood tests were normal. Due to these frequent seizures, the carbamazepine dose was raised to 800 mg/day. On follow-up fifteen days later, the seizures had continued with the same frequency. Blood testing found a fasting blood glucose level of 28 mg/dl. Testing repeated one day later found a fast-

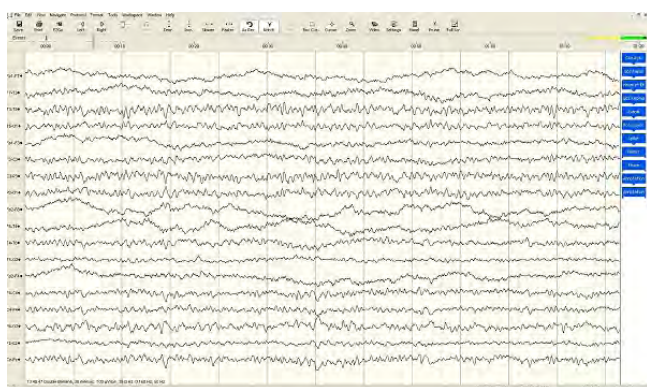


Figure 1. Sharp waves, more obvious especially in the left temporal and parietal regions

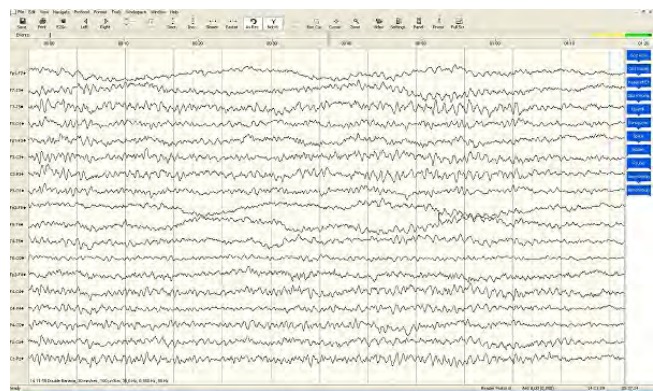


Figure 2. Sharp waves, spread to all areas of both hemispheres

ing blood glucose level of 36 mg/dl. The patient was examined for a hypoglycemic etiology. A fasting test found blood glucose levels of 32 mg/dl at 18 hours. Abdominal computerized tomography (CT) found a mass lesion in the pancreas. The patient was operated on with a diagnosis of insulinoma.

## Discussion

We report an insulinoma case with continued seizures although she had been using anti-epileptic treatment for years. The patient was diagnosed as insulinoma 2 years after onset of clinical symptoms of epileptic seizures. Correct diagnosis of insulinoma may be delayed by 1 to 30 years [1], and there are several reasons for this delay. The main reason is the low incidence of insulinoma and as a result the possibility of it may not be thought of during the differential diagnosis. Second, some symptoms of insulinoma, such as confusion, personality changes, seizures, and movement disorders are nonspecific findings in many neurological and psychiatric diseases. Lastly, as insulin release is pulsatile, fasting blood glucose levels may be within normal limits [3].

Our insulinoma patient with clinical symptoms mimicking epilepsy had abnormal findings on EEG. Widespread or focal slowing may be observed on EEG; at the same time, interictal epileptic discharge and electrical seizures may be observed [4]. Animal experiments have triggered hypoglycemic seizures and observed that seizures originated in the mesial temporal structures, such as the amygdala and hippocampus [5]. These clinical and EEG findings together may cause the clinician to think the diagnosis is epilepsy. As mentioned above, since insulin release is pulsatile, fasting blood glucose levels may be within normal limits. Our patient was followed for epilepsy due to clinical findings and EEG findings, and previous blood tests had not identified hypoglycemia.

Hypoglycemic attacks at intervals should bring insulinoma to mind. One of the most appropriate diagnostic tests is the fasting test. In this test, the patient fasts for 72 hours and glucose levels are checked every 1–2 hours until they fall below 50 mg/dl. [1].

Insulinoma may be observed with typical epileptic seizures while EEG findings are in accordance with epilepsy, and measured fasting blood glucose levels may be normal. Our aim in presenting this case is to point out the importance of metabolic causes in the differential diagnosis of epilepsy.



**Competing interests**

The authors declare that they have no competing interests.

**References**

1. Findley A, Arenas RB, Kaplan EL. Insulinoma. In: Percopo V, Kaplan EL, editors. GEP and multiple neuroendocrine tumours. Padua: Piccin,1996.p.299–318.
2. Striano S, Striano P, Manganelli F, Boccella P, Bruno R, Santoro L, et al. Distal hypoglycemic neuropathy. An insulinoma-associated case, misdiagnosed as temporal lobe epilepsy. *Neurophysiol Clin* 2003;33(5):223-7.
3. Mitrakou A, Fanelli C, Veneman T, Perriello G, Calderone S, Platanisiotis D, et al. Reversibility of unawareness of hypoglycemia in patients with insulinomas. *N Engl J Med* 1993;329(12):834-9.
4. Wang S, Hu HT, Wen SQ, Wang ZJ, Zhang BR, Ding MP. An insulinoma with clinical and electroencephalographic features resembling complex partial seizures. *J Zhejiang Univ Sci B* 2008;9(6):496-9.
5. Tokizane T. Sites of origin of hypoglycemic seizures in the rabbit. *AMA Arch Neurol Psychiatry* 1957;77(3):259-66.

**How to cite this article:**

Şen HM, Balcı Ç, Özkan A, Özişik Karaman HI. Insulinoma May Present as Epilepsy: A Case Report. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 515-7.



## A Case of Papillary Thyroid Carcinoma Leading to Destruction of The Skin

### Cilt Destrüksiyonuna Neden olan Papiller Tiroid Karsinomu Olgusu

Papiller Tiroid Karsinomu, Cilt Destrüksiyonu / Papillary Thyroid Carcinoma, Skin Destruction

Oğuzhan Aksu, Bünyamin Aydın, Banu Kale Köroğlu, Mehmet Numan Tamer  
İç Hastalıkları ABD, Endokrinoloji ve Metabolizma BD, Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi, Isparta, Türkiye

#### Özet

Tiroid kanseri insidansı ülkemizde ve tüm dünyada giderek artmaktadır. Tiroid kanserleri, tüm endokrin kanserlerinin yaklaşık %94.5' ini oluşturmaktadır. Biz bu vaka takdiminde tiroid ince iğne aspirasyon biyopsisi sonucu papiller karsinom olarak raporlanan, fakat operasyonu kabul etmeyen ve boyun orta hattında akıntılı bir yara ile başvuran 83 yaşında erkek bir olguyu sunuyoruz.

#### Anahtar Kelimeler

Papiller Tiroid Karsinomu; Cilt Destrüksiyonu

#### Abstract

Incidence of the thyroid carcinoma is steadily increasing in our country and all around the world. Thyroid cancer accounts for about 94.5% of all endocrine cancers. We herein report a 83-year-old man presenting with complaints of an open wound on the neck who had been previously diagnosed as papillary thyroid carcinoma via fine needle aspiration biopsy but who had refused the surgical resection.

#### Keywords

Papillary Thyroid Carcinoma; Skin Destruction; Neck Mass

DOI: 10.4328/JCAM.3365

Received: 05.03.2015 Accepted: 01.04.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 518-20

Corresponding Author: Bünyamin Aydın, Endokrinoloji ve Metabolizma Hastalıkları, Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi, 3200, Isparta, Türkiye.

T.: +90 2462119221 GSM: +905056790625 E-Mail: aydinbunyamin@yahoo.com

## Introduction

Thyroid cancer originating from the follicular epithelial cells is a frequently encountered malignancy and its incidence is steadily increasing in many regions of the world [1, 2]. The main histological types are papillary, follicular, and anaplastic carcinomas. The most common type of thyroid cancers is papillary carcinoma (PTC) with it accounting for about 80 to 90% off all cases [3]. If its size is under 1 cm, it has been classified as “microcarcinoma” by the World Health Organization (WHO) [4]. Tumor diameter usually ranges between 1 and 4 cm, and long axis is averagely 2 to 3 cm [5]. PTC is usually multifocal in one lobe and it is bilateral in 20 to 80% of the patients. Extra-thyroidal invasion is found in 15% (5-34%) of the patients during primary surgery, and one third of the patients with PTC present with lymphadenopathy [5]. At the time of diagnosis, distant metastases are found in only 1 to 7% of the patients [5].

## Case Report

An 83 years old men presented with complaints of swelling on the mid-line, dyspnea, and hoarseness 5 years ago. Imaging studies revealed that the mass showed infiltration toward thyroid cartilage and the larynx on the mid-line. The performed fine-needle aspiration biopsy revealed papillary thyroid carcinoma (Figure 1). The patient was suggested to have operation

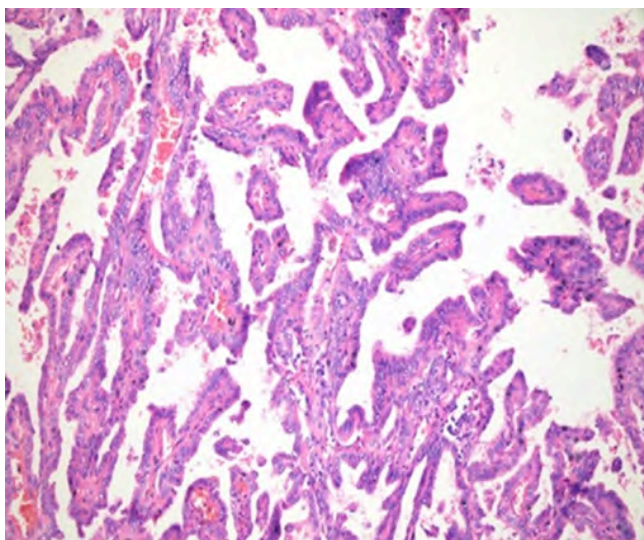


Figure 1. Formed papillary structures invasive tumor (H&E, x200).

and he refused the operation. It was learned from the patient that he didn't seek any medical advice for his condition over period of 5 years. At the time of presentation to our clinic, the patient had dyspnea, fatigue, and hoarseness. The physical examination revealed a mass of

about 10 x 10 cm on the mid-line. On the middle of the mass, the skin was observed to be destructed on an area of about 4 x 3 cm. The thyroid tissue was easily observable on this area (Figure 2). The patient expressed that he had frequently episodes of bleeding from this uncovered area; brown staining was observed around these bleeding foci that we initially considered to be Baticon. Then, it was learned from the patient that he applied coffee on this area to stop the bleeding. Nonetheless, the destructed area didn't appear to be infected. Laboratory investigations were as follows: Fasting blood glucose: 94 mg/dL (74-106), creatinine: 0.96 (0.6-1.3) mg/dL, albumin: 4.6 g/



Figure 2 : Appearance of the neck of the patient

dL (3.5-5.2), Hemoglobin: 6.7 g/dL (13.6- 17.2), Fe: 113 mg/dl, Ferritin: 6 ng/ml (13-150), Iron dinging capacity: 372 µg/dl (155-300), 25(OH)D3: 27 ng/ml (20-100), Vitamin B12: 223 pg/ml (191-663), free T3: 3.15 (2.5-3.9) pg/ml, free T4: 0.83 (0.61-1.12) ng/dl, TSH: 0.34 (0.34-5.6) µIU/ml. Hemodynamics of the patient was normalized by giving 2 units of erythrocyte suspension. Magnetic resonance imaging (MRI) investigation of the neck revealed a mass lesion of 55 x 54 x 49 mm invading the thyrohyoid and omohyoid muscles anterior to the thyroid cartilage. Operation was recommended to the patient but he refused it.

## Discussion

An age- and sex-dependent increase is being observed in frequency of the thyroid cancers compared to other types of cancer [6]. A report based on cancer statistics noted that the analyses performed for the years between 1980 and 2005 showed that mostly small-sized tumors were responsible for the increase in incidence of the thyroid cancers but also drew attention to the fact that there was statistically significant increase in incidence of the tumors larger than 5 cm. Furthermore, increase was found in incidence of the local and distant metastases [7]. In all studies, advanced age and presence of extra-thyroidal invasion at the time of diagnosis were shown to be independent risk factors. Presence of distant metastasis and big tumor size at the time of diagnosis were taken as variables determining the prognosis and some studies took histopathological grade as independent variable. Initially, complete removal of the tumor was found to be the main determinant of mortality in the post-operative period. Presence of nodal metastasis at the time of diagnosis was found to be associated with nodal recurrence and seen not to impact case-specific mortality [8].

We found it suitable to present the patient here with papillary carcinoma who refused operation 5 years ago and whose tumor was destructing the skin on the mid-line and uncovering the thyroid tissue because of the traditional methods he used to stop bleeding. Although prognosis of the differentiated thyroid cancers is good and life expectancy is quite long, it is clear that close monitoring with early diagnosis and appropriate treatment shouldn't be ignored.

### **Competing interests**

The authors declare that they have no competing interests.

### **References**

1. Davies L, Welch HG. Increasing incidence of thyroid cancer in the United States. *JAMA* 2006;295(18):2164-7.
2. Hayat MJ, Howlader N, Reichman ME, Edwards BK. Cancer statistics, trends, and multiple primary cancer analyses from the Surveillance, Epidemiology, and End Results (SEER) Program. *Oncologist* 2007;12(1):20-37.
3. Xing M. BRAF mutation in papillary thyroid cancer: pathogenic role, molecular bases, and clinical implications. *Endocr Rev* 2007;28(7):742-62.
4. Hay ID, Thompson GB, Grant CS, Bergstralh EJ, Dvorak CE, Gorman CA, et al. Papillary thyroid carcinoma managed at the Mayo Clinic during six decades (1940-1999): temporal trends in initial therapy and long-term outcome in 2444 consecutively treated patients. *World J Surg* 2002;26(8):879-85.
5. Hay ID. Papillary thyroid carcinoma. *Endocrinol Metab Clin North Am* 1990;19(3):545-76.
6. Kohler BA, Ward E, McCarthy BJ, Schymura MJ, Ries LA, Ehemann C, et al. Annual report to the nation on the status of cancer, 1975-2007, featuring tumors of the brain and other nervous system. *J Natl Cancer Inst* 2011;103(9):714-36.
7. Enewold L, Zhu K, Ron E, Marrogi AJ, Stojadinovic A, Peoples GE, et al. Rising thyroid cancer incidence in the United States by demographic and tumor characteristics, 1980-2005. *Cancer Epidemiol Biomarkers Prev* 2009;18(3):784-91.
8. Paschke R, Schmid KW, Gärtner R, Mann K, Dralle H, Reiners C. Epidemiology, pathophysiology, guideline-adjusted diagnostics, and treatment of thyroid nodules. *Med Klin* 2010;105(2):80-7.

### **How to cite this article:**

Aksu O, Aydın B, Köroğlu BK, Tamer MN. A Case of Papillary Thyroid Carcinoma Leading to Destruction of The Skin. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 518-20.



## A Very Rare Cause of Subglottic Stenosis: Non-Malignant Intratracheal Thyroid Tissue

### Subglottik Stenozun Çok Nadir Bir Nedeni: İntratrakeal Malign Olmayan Tiroid Dokusu

İntratrakeal Malign Olmayan Tiroid Dokusu / Non-Malignant Intratracheal Thyroid Tissue

Ümit Aydoğmuş<sup>1</sup>, Figen Türk<sup>1</sup>, Gökhan Yuncu<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Göğüs Cerrahisi, Pamukkale Üniversitesi Tıp Fakültesi, Denizli,

<sup>2</sup>Göğüs Cerrahisi Kliniği, Liv Hospital, İstanbul, Türkiye

#### Özet

Burada multinodüler guatr nedeniyle 14 yıl önce opere olmuş bir hastada nüklele birlikte benign tiroid dokusunca invazyona bağlı subglottik stenozlu bir olgu sunulmuştur. 14 yıl önce bilateral subtotal tiroidektomi geçirmiş hastanın patolojisi multinodüler tiroid dokusu olarak raporlanmıştı. Ani solunum sıkıntısı gelişmesi üzerine acil servise getirilen hasta merkezimize yönlendirilmişti. Servikal tomografisinde tiroid bezi seviyesinde trakeaya sol yan duvardan invazyon göstererek trakea çapını %80 oranında daraltan bilateral tiroid dokusu izlendi. Ciddi solunum sıkıntısı nedeniyle acil trakeostomiye alınan hastanın trakeası krikoid kartilajın 2,5 cm kadar altından vertikal insize edildi. Sol kord vokalden sınırı ayrılmayan 2 cm boyunca devam eden endotrakeal lezyon izlendi, hem bu lezyondan hem de trakea çevresindeki dokudan biyopsiler alındı. Subglottik alandan distale uzanan Montgomery T tüp yerleştirildi. Patolojisinde normal tiroid dokusu ile uyumlu histopatolojik bulgular izlendi. Tiroid kanserine bağlı trakea invazyonu sık olmakla birlikte oluşabilmektedir. Biz benign nedenli tiroid cerrahisi sonrası intratrakeal nüks gelişmiş bir olgu ve onun acil tedavisi sunduk

#### Anahtar Kelimeler

Subglottik Stenoz; İntratrakeal Tiroid; Guatr Ameliyatı Komplikasyonu

#### Abstract

We present a case of subglottic stenosis associated with benign thyroid tissue involvement due to relapse of multinodular goiter despite surgery 14 years ago. The patient had undergone bilateral subtotal thyroidectomy 14 years ago and the pathology report had been multinodular thyroid tissue at the time. The patient recently presented to an emergency service due to sudden development of respiratory distress and was then directed to our center. Cervical tomography showed bilateral thyroid tissue that narrowed the tracheal diameter by 80% by invading the trachea from the left wall at the level of the thyroid gland. The patient required urgent tracheostomy due to serious respiratory trouble. The trachea was incised vertically about 2.5 cm below the cricoid cartilage. A 2 cm endotracheal lesion with margins that could not be distinguished from the left vocal cord was observed and biopsies were taken from both this lesion and the tissue surrounding the trachea. A Montgomery T-tube extending from the subglottic area to the distal section was placed. Pathology evaluation revealed histopathological findings that matched normal thyroid tissue. Although infrequent, tracheal invasion associated with a thyroid cancer is known to occur. We present a case with postoperative intratracheal relapse due to a benign cause and the emergency treatment.

#### Keywords

Subglottic Stenosis; Intratracheal Thyroid Tissue; Complication of a Goiter Operation

DOI: 10.4328/JCAM.3370

Received: 07.03.2015 Accepted: 31.03.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 521-3

Corresponding Author: Ümit Aydoğmuş, Göğüs Cerrahisi A.D. Pamukkale Üniversitesi Tıp Fakültesi, Denizli, Türkiye.

GSM: +905512614232 F.: +90 2582961765 E-Mail: mdaydogmus@yahoo.com

## Introduction

The causes of benign tracheal stenosis include intubation, tracheostomy, chemical or thermal damage and trauma, and less frequently inflammatory or connective tissue diseases, sarcoidosis and idiopathic subglottic stenosis [1]. Tracheal injury during a thyroid surgery is very rare [2, 3]. Minor iatrogenic rupture can go unnoticed and reappear in very late periods as a relapse of the disease or subglottic stenosis. We present a patient who had undergone bilateral subtotal thyroidectomy due to multinodular goiter and developed a subglottic stenosis associated with intratracheal thyroid tissue 14 years after the surgery for the first time in the literature.

## Case Report

A 37-year-old female patient underwent bilateral subtotal thyroidectomy 14 years ago and the pathology report was multinodular thyroid tissue. The patient had been using asthma treatment for the last three years. The respiratory problems particularly the shortness of breath and stridor had increased recently. She presented to the emergency service of an external health care facility because of acute respiratory distress. The indirect laryngoscopy by the otolaryngologist revealed a tracheal mass under the vocal cords and she was referred to our center. Her stridor could be heard without auscultation during her physical examination. A soft tissue formation sized 15x12 mm was seen on her cervical computed tomography. The mass was localized on the left subglottic area and extended towards the lumen, causing about 80% stenosis in the lumen of the larynx and trachea. There was heterogeneous contrast enhancement involvement after an intravenous contrast medium injection and the margins could not be distinguished clearly from the left thyroid lobe (Figure 1). The margins also could not be



Figure 1. Computed cervical tomography coronal plane

distinguished from the left vocal cord on the superior aspect (Figure 2). Both thyroid lobes seemed to be increased in size and had a heterogeneous appearance. Additionally, heterogeneous iso-hypoechoic solid nodular lesions were seen in both thyroid lobes; the largest was 19 mm in size and located on the posterior aspect of the middle part of the left thyroid lobe on cervical computed tomography (Figure 3).

Urgent tracheostomy was required due to serious respiratory distress. The trachea was incised vertically about 2.5 cm under cricoid cartilage. There was a 2 cm endotracheal lesion whose



Figure 2. Computed cervical tomography sagittal plane



Figure 3. Computed cervical tomography transverse plane

borders with the left vocal cord could not be distinguished. The left side of this area was invaded by a thyroid tissue. Many biopsies were taken from both this lesion and the tissue surrounding the trachea. Intratracheal tissue was removed as much as possible by electrocautery and sharp dissection. A Montgomery T-tube was placed extending from the subglottic area to the distal section (Figure 4). The respiratory difficulty was relieved



Figure 4. Postoperative lateral graphy

after the surgery. The pathology result was reported as thy-

roid tissue. Thyroid I-131 scintigraphy was performed after the patient's breathing became stable and revealed a hyperplastic normoactive thyroid gland that showed invasion into the trachea.

The patient is being monitored and is now in the 7th postoperative month with no problems.

Informed Consent: Written informed consent was obtained from patient who participated in this case.

### Discussion

The causes of benign stenoses of the subglottic tracheal area involve post-intubation and tracheostomy, and rarely trauma and idiopathic situations. Iatrogenic tracheal ruptures are extraordinarily rare and have most commonly been described after manipulations such as intubation and bronchoscopy [2]. Tracheal ruptures occurring during surgery on the thyroid are usually noticed during the procedure [3]. Gosnel et al. [3] have reported tracheal rupture during surgery in only one case (0.06%) out of 11917 thyroid operations and primary repair was performed during the procedure. A few cases that resulted in tracheal necrosis and rupture in the late postoperative period due to excessive cautery or prolonged intubation have been reported [2, 4].

Thyroid tumors are known to cause transmural invasion of the trachea [5]. The cause is trachea obstruction in nearly a half of fatal papillary thyroid carcinomas [5]. We are the first to report involvement of the trachea by benign thyroid tissue. Moreover, the patient presented with acute respiratory distress 14 years after her first operation. The biopsies taken from both inside the trachea and the tissue outside the trachea revealed benign thyroid tissue. In view of these findings, we considered a relapse that also involved an endotracheal component occurring many years later due to an unnoticed small tracheal rupture during the initial thyroid surgery.

Benign tumors of the trachea are rare and both short- and long-term results of endoscopic treatment are satisfactory [6]. Surgical treatment is recommended when the tumor base is not entirely visible, as in the present case [7]. Subglottic stenoses are complex problems [5]. The location and size of the lesions and the complications due to obstruction are important factors in the choice of the treatment method [6]. Patients with benign tracheal tumors that usually grow slowly may have received treatment for asthma for a long time [6]. Unfortunately, our case was not diagnosed until emergency intervention was required for acute respiratory distress. Endoscopic treatment modalities were not used in our patient as the base of the tumor was not entirely visible and an emergency airway had to be provided. The patient underwent urgent tracheostomy. A T-tube was preferred instead of standat tracheostomy canule for protecting the vocal cords functions. Major surgery was not performed as the left vocal cord was seen to have been involved by the thyroid tissue during the procedure. Using a T-tube instead of a tracheostomy has the advantages of enabling speech, normal humidification of the trachea, causing less mucosal damage and acting as a stent on the tube's both proximal and distal aspect. It also restores airways temporarily or permanently in situations where there is a non-removable lesion or it is impossible to perform reconstruction [8].

We have presented a case with benign intratracheal thyroid tis-

sue that caused subglottic stenosis as a very late complication of thyroidectomy 14 years ago for the first time in the literature. Benign tumors of the trachea can be treated by endoscopy but surgery may sometimes be needed. Tracheostomy is needed very rarely. Using a T-tube may be an option if it is not possible to remove the lesion.

### Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

### References

1. Perotin JM, Jeanfaivre T, Thibout Y, Jouneau S, Lena H, Dutau H, et al. Endoscopic management of idiopathic tracheal stenosis. *Ann Thorac Surg* 2011;92(1):297-301.
2. Mazeh H, Suwanabol PA, Schneider DF, Sippel RS. Late manifestation of tracheal rupture after thyroidectomy: case report and literature review. *Endocr Pract* 2012;18(4):73-6.
3. Gosnell J E, Campbell P, Sidhu S, Sywak M, Reeve TS, Delbridge W. Inadvertent tracheal perforation during thyroidectomy. *Br J Surg* 2006;93(1):55-6.
4. Chauhan A, Ganguly M, Saidha N, Gulia P. Tracheal necrosis with surgical emphysema following thyroidectomy. *J Postgrad Med* 2009;55(3):193-5.
5. Yang CC, Lee CH, Wang LS, Huang BS, Hsu WH, Huang MH. Resectional treatment for thyroid cancer with tracheal invasion: a long-term follow-up study. *Arch Surg* 2000;135(6):704-7.
6. Ceylan KC, Akpınar D, Üsluer O, Ünsal Ş, Polat H, Aydoğdu Dinç Z. Leiomyoma of the Trachea: Case report. *Eurasian J Pulmonol* 2011;3(2):125-7.
7. Dalar L. Trakeanın benign darlıklarında girişimsel bronkoskopik yöntemler. In Bedirhan MA editor, *Trakea*. Istanbul: Probiz Ltd Şti; 2012. p.129-57.
8. Grillo HC. Development of Tracheal Surgery: A Historical Review. Part 1: Techniques of Tracheal Surgery. *Ann Thorac Surg* 2003;75(2):610-9.

### How to cite this article:

Aydoğmuş Ü, Türk F, Yuncu G. A Very Rare Cause of Subglottic Stenosis: Non-Malignant Intratracheal Thyroid Tissue. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 521-3.



## A Case of Chemical Ventriculitis Due to Intraventricular Colistin Treatment

### İntraventriküler Kolistin Tedavisine Bağlı Gelişen Kimyasal Ventrikülit Olgusu

Gelişen Kimyasal Ventrikülit Olgusu / A Case of Chemical Ventriculitis

Bayram Ali Dorum<sup>1</sup>, Tayibe Bal<sup>2</sup>, Utku Özer<sup>1</sup>, Fatma Deniz Aygün<sup>3</sup>, İbrahim Şilfeler<sup>1</sup>  
<sup>1</sup>Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları, Mustafa Kemal Üniversitesi, Tayfur Ata Sökmen Tıp Fakültesi, Hatay,  
<sup>2</sup>Enfeksiyon Hastalıkları, Mustafa Kemal Üniversitesi, Tayfur Ata Sökmen Tıp Fakültesi, Hatay,  
<sup>3</sup>Çocuk Enfeksiyon Hastalıkları, İstanbul Üniversitesi, Cerrahpaşa Tıp Fakültesi, İstanbul, Türkiye

#### Özet

Nozokomiyal santral sinir sistemi enfeksiyonlarında mortalite oranları yüksek olup, etkenin *Acinetobacter* spp. olduğu durumlarda mortalite %70'lere ulaşabilmektedir. Yüksek mortalite oranları nedeniyle *Acinetobacter baumannii*'nin etken olduğu ventrikülit olgularında intraventriküler uygulamayı da içeren güncel tedavi yaklaşımları önem kazanmaktadır. Bu makalede *A. baumannii*'nin etken olduğu ventriküloperitoneal şant ilişkili bir ventrikülit olgusu sunuldu. Şantın çıkarılmasına rağmen persiste eden ve eşlik eden çoklu ilaca dirençli *A. baumannii*'nin etken olduğu kan dolaşımı enfeksiyonu olan olguya uzun süreli intravenöz meropenem, kolistin, rifampisin ile intraventriküler kolistin ve gentamisin tedavileri uygulandı. İntraventriküler tedavi sırasında beyin omurilik sıvısının (BOS) ardışık kültürlerinde üreme olmamasına rağmen pleositoz, glukoz seviyesinde düşüş ve ateş yüksekliği devam eden olguda kimyasal ventrikülit düşünüldü. Tedavi dozu yarıya düşürülerek, uygulama sıklığı 48 saatte bir olarak değiştirildi. Kimyasal ventrikülit tablosu gerileyen olguda tedavi tamamlanarak kür sağlandı. İntravenöz tedavinin başarısız olduğu bu ventrikülit olgusunda, intraventriküler kolistin tedavisi *A. baumannii*'yi eradike etmede etkili ve olguda kimyasal ventrikülit tablosu gelişmesine rağmen güvenli bulundu.

#### Anahtar Kelimeler

Kimyasal Ventrikülit; İntraventriküler Tedavi; Kolistin

#### Abstract

Nosocomial infections of central nervous system have high mortality, if they are due to *Acinetobacter* spp., the rate can be as high as 70%. Intraventricular treatment of ventriculitis, caused by *Acinetobacter baumannii* can be considered as current treatment choice, because of this high mortality. Here in, we report a case of ventriculitis, caused by *A. baumannii* related to ventriculoperitoneal shunt. We used to treat both with intravenous meropenem, colistin, rifampicin and intraventricular colistin and gentamcin because of persistent ventriculitis after removal of the shunt and multi drug resistant blood flow infection of *A. baumannii*. The culture of cerebrospinal fluid (CSF) became sterile with intraventricular treatment, but pleocytosis, fever and low glucose level of CSF persisted and chemical ventriculitis was considered to become. We continued the treatment with decreasing the dosage and increasing the interval of drug and were successful both in treatment of the infectious and chemical ventriculitis. The aim of this article is to report the successful treatment of ventriculitis caused by *A. baumannii* with intraventricular colistin in the fail of intravenous treatment, despite of reversible chemical ventriculitis.

#### Keywords

Chemical Ventriculitis; Intraventricular Treatment; Colistin

DOI: 10.4328/JCAM.3375

Received: 10.03.2015 Accepted: 01.04.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 524-6

Corresponding Author: Bayram Ali Dorum, Ertuğrul Mah. 128. Sokak, Bakgör Yaşam Evleri-1, F blok No: 6, Nilüfer, Bursa, Türkiye.

GSM: +905337078398 E-Mail: bayramalidorum@gmail.com



## Giriş

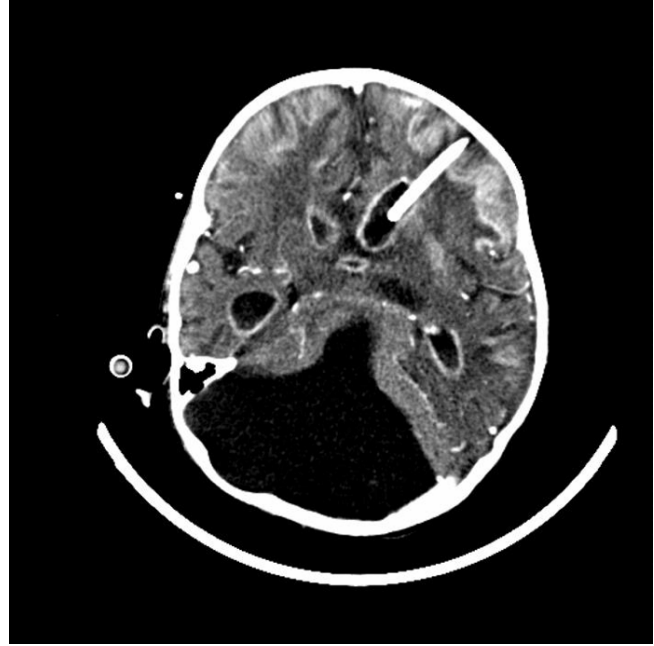
Ventrikülit beynin ventriküler sisteminin enfeksiyonudur. Sıklıkla menenjitin geç bir komplikasyonu olarak görülmekle birlikte BOS şantı ilişkili veya eksternal ventriküler drenaj (EVD) ilişkili olarak da görülebilmektedir [1]. Ventrikülitte meningeal inflamasyon şiddeti menenjite oranla daha az belirgin olduğundan BOS da daha yüksek ilaç konsantrasyonu sağlayabilecek intraventriküler (İVT) tedavilerin, intravenöz (İV) tedaviler ile kombine edilmesi tedavi başarısında önemlidir [1,2].

Kimyasal ventrikülit, İVT ilaç uygulamalarının en önemli yan etkisidir ve %4.2-6.1 oranında görülmektedir [3,4]. Sıklıkla BOS hücre sayısında artış ve glukoz seviyesinde düşüş ile prezente olan ve bakteriyel menenjiti taklit eden bu tabloda tek fark BOS kültüründe üreme olmamasıdır [3]. İVT tedaviler yan etkilerinden korkulması nedeniyle son tedavi seçeneği olarak tercih edilmekle birlikte, sunulan olguda da olduğu gibi kimyasal ventrikülit reversibl bir yan etkidir ve irreversibl olgu bildirilmemiştir [3,4].

İntraventriküler kolistin ve gentamisin uygulaması sırasında kimyasal ventrikülit gelişen bu olgu, uygulamaların sık tercih edilmemesi nedeniyle nadir karşılaşılan bu yan etkiye ve yönetimine dikkat çekilmesi amacıyla paylaşılmaya değer bulunulmuştur.

## Olgu Sunumu

Dandy-Walker malformasyonuna bağlı hidrosefali nedeniyle takipli 2 yaşında erkek hasta, ateş yüksekliği nedeniyle kliniğimize başvurdu. Bir buçuk ay önce şant enfeksiyonu nedeniyle ventriküloperitoneal (VP) şant revizyonu yapılan hastada ateş yüksekliğinin ve kusmalarının devamı nedeniyle 7 gün önce şant çıkarılmıştı. Fizik bakıda genel durumu kötü, uykuya meyilli, solunum ve kardiyovasküler sistem muayeneleri ise doğaldı. Ağırlığı 10 kg (< 3p), boyu 90 cm (50-75p), baş çevresi 56 cm (<97 p) ve vücut ısısı 38,2 °C idi. Nörolojik bakısında başını tutmada ve oturmada zayıflık olan hastada meningeal irritasyon bulguları pozitif. Laboratuvar tetkiklerinde Hb: 9,7 gr/dL, Hct %29, WBC: 27100/mm<sup>3</sup>, PLT: 783000/mm<sup>3</sup>, C-reaktif protein: 189 mg/L (Normal <10 mg/L), Na: 119 mEq/L, diğer biyokimyasal parametreleri ise normal saptandı. Lomber ponksiyon ile alınan beyin omurilik sıvısı [BOS]'nın incelemesinde görünüm bulanık, protein 413 mg/dL, glukoz < 5 mg/dL [eş zamanlı kan glukozu 91 mg/dL] idi. BOS sıvısının mikroskopik incelemesinde 450 hücre/mm<sup>3</sup> saptanırken, %90 polimorfonükleer lökosit (PNL) hakimiyeti mevcut idi. Ampirik olarak vankomisin ve seftriakson tedavileri başlandı. Kranial bilgisayarlı tomografi (BT)'sinde Dandy-Walker malformasyonu, serebral atrofi ve ventrikülit ile uyumlu bulgular [ventrikül duvarlarında belirgin kontrast madde tutulumu ve her iki lateral ventrikül lümeni içerisinde BOS dansitesinde belirgin artış ve debrisler saptandı (Resim 1). Gram boyalı preparatta gram negatif kokobasiller görülen hastamızın BOS kültüründe A. baumannii üredi. Antibiyotik duyarlılık testine seftriakson ve vankomisin tedavileri sonlandırılarak İV meropenem ve gentamisin tedavilerine geçildi. Meropenem tedavisinin 5. gününde ateş yüksekliği devam eden olguda İV tedaviye yanıtın yetersiz olduğu düşünülerek hastaya EVD takıldı. İV gentamisin tedavisi sonlandırılarak, gentamisin tedavisine 2 mg İVT uygulama ile devam edildi. Meropenem tedavisinin 7. gününde BOS materyalinin gram boyamasında gram negatif basil varlığının devamı, BOS incelemesinde 150.000/mm<sup>3</sup> hücre görül-



Resim 1. Kranial BT'sinde Dandy-Walker malformasyonu, serebral atrofi ve ventrikülit ile uyumlu bulgular (ventrikül duvarlarında belirgin kontrast madde tutulumu ve her iki lateral ventrikül lümeni içerisinde BOS dansitesinde belirgin artış ve debrisler) saptandı.

mesi ve kan kültüründe çoklu ilaca dirençli [meropenem dirençli, gentamisin dirençli] A. baumannii üremesi nedeniyle 5 mg İVT kolistin ve 5mg/kg İV kolistin mevcut tedavisine eklendi. Kolistin İV+İVT tedavisinin 3. gününde BOS'ta hücre sayısı 450/mm<sup>3</sup>'e geriledi. Ancak kolistin tedavisinin 7. gününde BOS hücre sayısı 240.000/mm<sup>3</sup>, protein 677 mg/dL, glukoz : <5 mg/dl, eş zamanlı kan glukozu 97 mg/dL saptandı. Tedavi dozunun yetersiz olabileceği düşünülerek İV kolistin 7mg/kg, İVT kolistin dozu ise 10 mg olarak artırıldı. Kontrol BOS kültürlerinde üreme olmayan ve gram boyamasında bakteri görülmeyen hastada ateş yüksekliği devam etmekte idi. Kolistin tedavisinin 10. gününde ateş yüksekliği devam eden, BOS incelemesinde hücre sayısı 40.000/mm<sup>3</sup> saptanan hastada gram boyamada hücre görülmemesi ve ardışık kültürlerinde de üreme olmaması nedeniyle mevcut tablo kimyasal ventrikülit olarak yorumlandı. İVT kolistin dozu yarıya düşürülürken (2.5 mg), uygulama sıklığı 48 saatte bir olarak değiştirildi ve İVT gentamisin tedavisi sonlandırıldı. İVT kolistin tedavisinin 21 güne tamamlanmasının ardından EVD çıkarıldı. Kontrol kranial BT' sinde ventrikülit bulguları devam eden olguda rifampisin mevcut tedaviye eklendi. Rifampisin tedavisinin 4. gününde BOS hücre sayısı 2.800/mm<sup>3</sup> olarak saptandı. Kolistin [56. gün], meropenem [53. gün], rifampisin tedavisi [40. gününde] BOS'ta hücre sayısı 77/ mm<sup>3</sup> olarak saptandı ve hastanın antibiyotik tedavisi sonlandırıldı. Takibinde baş çevresi ve ventrikül genişlikleri normal kalan hasta şant takılmadan beyin cerrahi ve çocuk nörolojisi tarafından takip edilmek üzere taburcu edildi.

## Tartışma

Acinetobacter son üç dekatta hastane enfeksiyonlarında dünya genelinde önem kazanmış gram negatif bir kokobasildir [5]. Nozokomiyal menenjitlerde mortalite oranı % 15 iken, etkenin Acinetobacter olduğu durumlarda bu oran % 40'a yükselmektedir. Gelişmekte olan ülkelerde mortalite oranları çok daha yüksek olup, Tuon ve ark. [6] tarafından 22 nozokomiyal A. bauman-

nii menenjitisi olgusunda yapılan çalışmada bu oran %72.7 olarak saptanmıştır.

Piyojenik ventrikülit intrakraniyal enfeksiyonların nadir bir komplikasyonudur. İntraventriküler cerrahi, intratekal (İT) kemo-terapi veya menenjit komplikasyonu olarak görülebileceği gibi, travma (posttravmatik BOS sızıntısı), ventriküler drenaj veya şant sonrasında da görülebilmektedir [7]. Bu makalede VP şant ilişkili bir ventrikülit vakası sunulmuştur.

Ventrikülit varlığı, şant enfeksiyonlarının tedavisinde persistan enfeksiyon ve tedavi başarısızlığı nedeni olabilir [1]. Bu nedenle ventrikülitin erken tanı ve tedavisi önemlidir. BOS glukozunda kademeli düşme ile BOS proteininde aşamalı artışa eşlik eden pleositoza (%50 veya daha fazla PNL hakimiyeti) ek olarak pozitif BOS kültürü/gram boyası ile birlikte yüksek ateş ve menenjitin klinik bulgularının (ense sertliği, mental durumda bozulma ve nöbetleri içeren) varlığı ventriküliti tanımlamaktadır [7].

Ventrikülitin radyolojik tanısında ventriküler debris varlığı en karakteristik bulgudur. MR görüntülemesinde olguların %78'inde tespit edilebilen periventriküler sinyal anormallikleri, periventriküler inflamatuvar değişimi yansıtır gibi görünmektedir. [7]. Sunulan olguda da bu karakteristik bulgular mevcut idi.

Şant enfeksiyonları için antimikrobiyal tedavi prensipleri akut bakteriyel menenjit tedavisi ile aynıdır. Ancak eradikasyonu zor etkenlerle oluşan enfeksiyonlarda ve şant değişiminin mümkün olmadığı olgularda şant rezervuarı veya eksternal ventrikülostomi aracılığıyla antimikrobiyal ajanların direkt olarak ventriküller içerisine uygulanması gerekebilir. Enfekte şantın çıkarılması ile uygun antimikrobiyal tedavinin kombine edilmesi, VP şant ilişkili ventrikülitin eradikasyonunda daha hızlı yanıt sağlamaktadır [7].

Antibiyotiklerin İVT uygulamaları sistemik antibiyotik tedavisine dirençli ventrikülit olguları ile sınırlandırılmış olsada ventrikülit olgularında meningeal inflamasyon menenjite oranla daha az belirgindir. Bu da verilen antimikrobiallerin kan beyin bariyerinden penetrasyonunu azaltacaktır. Ayrıca ventriküller, enfeksiyon ve inflamasyon için persistan bir rezervuar görevi görerek enfeksiyonun eradikasyonunu zorlaştırabilir veya BOS akımında blokaja neden olabilirler [1]. Bu nedenle ventrikülit varlığı sistemik tedavilere ilave İVT/İT uygulamaları gerektirebilir. Bu yolla önerilen antibiyotikler ve dozları şu şekildedir; vankomisin (5–20 mg/gün), gentamisin (1–8 mg/gün), tobramisin (5–20 mg/gün), amikasin (5–50 mg/gün), polimiksin B (5 mg/gün), kolistin (10 mg/gün), teikoplanin (5–40 mg/gün) [7]. Sunulan olguda da sistemik antibiyotik tedavisine yanıt alınmadığından İVT gentamisin ve kolistin tedavileri tercih edilmiştir.

Markantonis ve ark.'nın [8] yaptığı bir çalışmada yoğun meningeal inflamasyon bulguları olmayan vakalarda kolistin BOS penetrasyonu çok düşük (%5) saptanmıştır. Bu sonuca dayanarak da İV kolistin monoterapisi güvenilir bulunmamış, gram negatif basillerin etken olduğu MSS enfeksiyonlarının tedavisinde ilave İT kolistin tedavisi gerekli görülmüştür. Sunulan şant ilişkili ventrikülit olgusunda da, sistemik tedaviye yeterli yanıt alınmamasında altta yatan neden meningeal inflamasyon şiddetinin düşük olması olabilir. Bu nedenle olguda sistemik ve İVT kolistin kombinasyon tedavisi tercih edilmiştir.

Cascio ve ark. [3] çoklu ilaca dirençli A. baumannii'nin etken olduğu menenjit nedeniyle İT/İVT kolistin tedavisi uygulanan tüm olgularda BOS'da bakteri eradikasyonu sağlandığını bildirmiş-

lerdir.

İntratekal, intraventriküler kolistin ile tedavi gören A. baumannii ventrikülit/menenjit olgularının değerlendirildiği bir diğer derlemede ise olguların % 89'unda [72/81] kür sağlanmıştır. İT/İVT kolistin uygulaması ile ilişkili toksisite % 11 oranında görülmüş olup, olguların %6'sında kimyasal ventrikülit/menenjit görülmüştür. Kimyasal ventrikülitin en sık klinik manifestasyonu negatif kültür sonuçlarına rağmen, BOS hücre sayısında artış ve glukoz seviyesinde düşüşe eşlik eden nörolojik semptomlar olarak raporlanmıştır [2].

İntratekal, intraventriküler kolistin tedavisinin nörotoksik yan etkilerinin en yaygın görülen formu kimyasal ventrikülit/menenjit olsa da reversibl bir yan etkidir ve irreversibl olgu bildirilmemiştir [3].

Sonuç olarak, ventrikülit gibi tedavisi güç, persiste eden ve meningeal inflamasyon şiddetinin az olduğu SSS enfeksiyonlarında, antimikrobiallerin BOS'a geçişi azalmış olduğundan İVT/İT aminoglikozitler ve kolistin tedavisi gibi güncel tedavi seçenekleri akılda tutulmalıdır. İVT/İT kolistin tedavi alan olgularda steril BOS kültürüne rağmen, ateş yüksekliği, mental durum değişikliği, BOS hücre sayısında artış ve glukoz seviyesinde düşüş ile bakteriyel menenjit taklit eden kimyasal ventrikülit/menenjit tablosu akılda tutulmalıdır.

#### Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

#### Kaynaklar

1. Pfausler B, Spiss H, Beer R, Kampl A, Engelhardt K, Schober M, Schmutzhard E. Treatment of staphylococcal ventriculitis associated with external cerebrospinal fluid drains: a prospective randomized trial of intravenous compared with intraventricular vancomycin therapy. *J Neurosurg* 2003;98(5):1040-4.
2. Karaiskos I, Galani L, Bazaika F, Giamarellou H. Intraventricular and intrathecal colistin as the last therapeutic resort for the treatment of multidrug-resistant and extensively drug-resistant *Acinetobacter baumannii* ventriculitis and meningitis: a literature review. *Int J Antimicrob Agents* 2013;41(6):499-508.
3. Cascio A, Conti A, Sinardi L, et al. Post-neurosurgical multidrug-resistant *Acinetobacter baumannii* meningitis successfully treated with intrathecal colistin. A new case and a systematic review of the literature. *Int J Infect Dis* 2010;14(7):572-9.
4. Munoz-Price LS, Weinstein RA. *Acinetobacter* Infection. *N Engl J Med* 2008;358(12):1271-81.
5. Korkmaz P, Çağlan F Ç, Aykın N, Alpay Y, Güldüren H M, Bilgi H, Koygun A. Antibiotic Resistance in *Acinetobacter baumannii* Strains Isolated from Nosocomial Infections. *J Clin Anal Med* 2015; DOI: 10.4328/JCAM.3156
6. Tuon FF, Penteado-Filho SR, Amarante D, Andrade MA, Borba LA. Mortality rate in patients with nosocomial *Acinetobacter* meningitis from a Brazilian hospital. *Braz J Infect Dis* 2010;14(5):437-40.
7. Agrwal A, Cincu R, Timothy J. Current Concepts and Approach to Ventriculitis. *Infect Dis Clin Pract* 2008;16(2):100-4.
8. Markantonis SL, Markou N, Foustieri M, et al. Penetration of Colistin into Cerebrospinal Fluid. *Antimicrob Agents Chemother* 2009;53(11):4907-10.

#### How to cite this article:

Dorum BA, Bal T, Özer U, Aygün FD, Şilfeler İ. A Case of Chemical Ventriculitis Due to Intraventricular Colistin Treatment. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 524-6.



## Atypical Celiac Disease Resistant to Thyroxine Replacement

### Tiroksin Replasman Tedavisine Dirençli Atipik Çölyak Hastalığı

Çölyak Hastalığı, Hipotiroidi, Levotiroksin / Celiac Disease, Hypothyroidism, Levothyroxine

Oğuzhan Aksu, Bünyamin Aydın, Banu Kale Köröğlü, Mehmet Numan Tamer  
İç Hastalıkları ABD, Endokrinoloji ve Metabolizma BD, Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi, Isparta, Türkiye

#### Özet

Çölyak hastalığı gluten içeren diyet alımına bağlı olarak gelişen immün aracılı enteropatidir, özellikle otoimmün tiroid hastalığı gibi diğer endokrin hastalıklarla yakından ilişkilidir. Çölyak hastalığı ve özellikle hashimoto tiroiditine sekonder hipotiroidi birlikteliği literatürlerde sıklıkla vurgulanmaktadır. Çölyak hastalığı ve otoimmün tiroid hastalığı arasındaki ilişki ilk olarak üç dekad önce tanımlanmıştır. Hastalar genellikle steatore ve diyare gibi klasik bulgularla başvurabilir fakat artan L-tiroksin dozu ihtiyacı ve kilo kaybı hipotiroidizm ile birlikte çölyak hastalığını iyi tanımlamaktadır. Bu olguların tiroksin replasmanına dirençli olduğu bilinmektedir. Biz 35 yaşında atipik çölyak hastalığı olan ve 1600 mcg/gün gibi oldukça yüksek doz tiroksin replasmanına ihtiyaç duyan kadın olguyu sunuyoruz.

#### Anahtar Kelimeler

Çölyak Hastalığı; Hipotiroidi; L-Tiroksin Replasmanı

#### Abstract

Celiac disease, an immune-mediated enteropathy that develops in susceptible individuals upon ingestion of gluten containing diet, is closely associated with other autoimmune endocrine disorders, particularly autoimmune thyroid disease. Celiac disease and hypothyroidism ( especially due to Hashimoto disease) cooccurrence is frequently mentioned in the literature. The relationship between celiac disease and autoimmune thyroid disease was first described three decades ago. Patients usually have the classical presentation of diarrhoea and steatorrhea but hypothyroidism with weight loss and increased dose requirement of L Thyroxine are two well recognised presentations of celiac disease in hypothyroidism. It is known that these cases are resistant to thyroxine replacement. Herein we presented a 35 year old female patient with atypical celiac disease and needed an extremely high dose of thyroxine such as 1600 mcg/day for treatment.

#### Keywords

Celiac Disease; Hypothyroidism; L-Tiroxin Replacement

DOI: 10.4328/JCAM.3383

Received: 09.03.2015 Accepted: 01.04.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 527-9

Corresponding Author: Bünyamin Aydın, Endokrinoloji ve Metabolizma Hastalıkları, Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi, 3200, Isparta, Türkiye.

T.: +90 2462119221 GSM: +905056790625 E-Mail: aydinbunamin@yahoo.com

## Introduction

Hypothyroidism is a common endocrine disorder that mainly affects women and the elderly [1]. Celiac disease (CD) is an immune-mediated disease triggered by an environmental agent, gluten, in genetically predisposed individuals, characterized by villous atrophy of the proximal small intestine and malabsorption. The association between CD and other autoimmune diseases such as type 1 diabetes mellitus, autoimmune thyroiditis, and other endocrine diseases has been reported in many studies in both children and adults [2]. Celiac disease and hypothyroidism (especially due to Hashimoto disease) cooccurrence is frequently mentioned in the literature [3]. It is known that these cases are resistant to thyroxine replacement [4].

## Case Report

35 year old female patient was referred due to complaints of weight gain, facial and periorbital swelling, constipation, and irregular menstrual cycle. In her medical history, she was operated for euthyroid multinodular goiter (EMG) in another center and the postoperative pathological analysis were benign. Levothyroxine (LT4) replacement was initiated during the postoperative period, but weekly dose was increased 50 mcg due to persistent high TSH levels. When the patient was referred to our clinics, she was taking a LT4 therapy of 1600 mcg/day and had complaints of forgetfulness, irregular menstruation, weight gain, and constipation. In addition LT3 therapy has not been initiated so far. Her physical examination showed an blood pressure of 110/70 mm/Hg, periorbital edema and decrease in intestinal movements. Patient was regularly taking her meds before meals and was not on any other drug or herbal supplement. Her laboratory values were as follows; fasting blood glucose: 90 mg/dl (74-106), creatinine: 0.83 mg/dl (0.6-1.3), albumin: 4.5 gr/dl (3.5-5.2), Hgb:13.7 gr/dl (13.6- 17.2), Ca: 9.1 mg/dl (8.8-10.6), P: 2.8 mg/dl (2.5-4.5), Fe: 113 mg/dl (60-180), Ferritin: 5.3 ng/ml (13-150), 25(OH)D3: 7.1 ng/ml (20-100), Vit B12:382 pg/ml (191-663), TSH: 15 µIU/ml (0.34-5.6) and cortisol: 34 mcg/dL. Malabsorption was thought as a cause and relevant investigations were carried out. Abdominal ultrasonography was within normal limits. Celiac antibodies (Anti-endomysium, anti-gliadin and tissue transglutaminase) were negative. Upper gastrointestinal endoscopy was performed; antral erosive gastritis and a flaccid lower esophagus was observed. Biopsies were taken from antrum, corpus and the second segment of duodenum. Biopsies of antrum and corpus revealed activated chronic gastritis, helicobacter pylori presence, and intestinal metaplasia. Intraepithelial lymphocyte increase (modified Marsh classification Type 1) was detected in duodenum biopsy (figures:1-2). Following gastroenterology consultation, patient was diagnosed as having atypical gluten enteropathy and a gluten free diet was initiated. Patient complied well with the diet and in her follow ups the LT4 dose was decreased to 600 mcg which is the dose the patient is currently on. Lowest TSH recorded in a year of follow up is 8 µIU/ml.

## Discussion

Cooccurrence of celiac disease and autoimmune hypothyroidism is frequent [4]. Our patient was unique in the sense that she did not possess autoimmunity and was a postoperative hypothy-

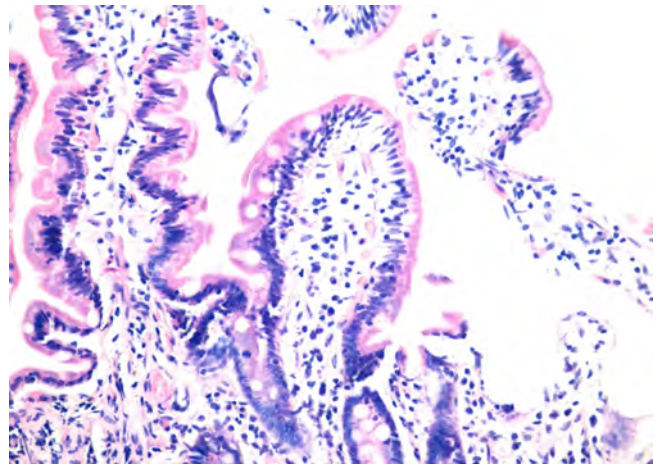


Figure 1. Intraepithelial lymphocyte infiltration in duodenum biopsy (H&E, x100).

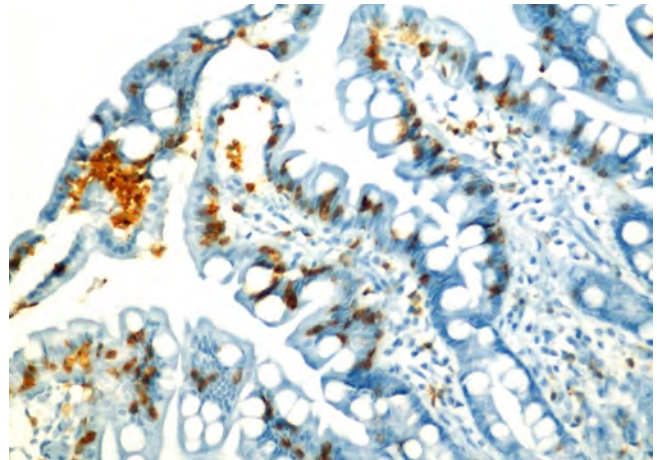


Figure 2. Immunohistochemical CD3 positivity in the intraepithelial lymphocytes (CD3, x200).

roidism case operated due to EMG. Recently, increases in the prevalence of atypical celiac disease of the adult are reported [5]. Atypical presentation is characterized by scarce clinical symptoms. Frequently, only a single symptom is observed, such as lack of body mass increase and growth retardation, anemia, dental enamel hypoplasia, osteoporosis, or pubertal delay. Silent presentation of celiac disease is diagnosed in asymptomatic patients with increased risk of the disease. Among diseases and conditions [6]. Our patient had no signs of malabsorption and had negative celiac antibodies, thus the diagnosis was histopathological. Various absorption disorders secondary to gastroenterological pathologies are common [7]. However, we find it difficult to explain such an extraordinary thyroxine resistance in our non autoimmunized patient only by the presence of atypical celiac disease. We believe problems with the pharmacokinetics of the drugs may be responsible for this outcome. Some reports in the literature point to suboptimal thyroxine replacement in a respectable proportion of the population [8]. As a result; after malabsorptive causes are excluded, adequacy of the replacement and possible thyroxine resistance should be addressed.

## Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

## References

1. So M, MacIsaac RJ, Grossmann M. Hypothyroidism. *Aust Fam Physician* 2012;41(8):556-2.

2. Guariso G, Conte S, Presotto F, Basso D, Brotto F, Visonà Dalla Pozza L, et al. "Clinical, subclinical and potential autoimmune diseases in an Italian population of children with coeliac disease" *Alimentary Pharmacology and Therapeutics* 2007;26(10):1409-17.
3. Virili C, Bassotti G, Santaguida MG, luorio R, Del Duca SC, Mercuri V et al. Atypical celiac disease as cause of increased need for thyroxine: a systematic study. *J Clin Endocrinol Metab* 2012;97(3):419-22.
4. McDermott JH, Coss A, Walsh CH. Celiac disease presenting as resistant hypothyroidism. *Thyroid* 2005;15(4):386-8.
5. Akin M, Songur Y, Aksakal G. Clinical and Laboratory Features and Extraintestinal Manifestations of Celiac Disease in Adults. *J Clin Anal Med* 2012;3(2):194-7.
6. Husby S, Koletzko S, Korponay-Szabó IR, Mearin ML, Phillips A, Shamir R, et al. ESPGHAN guidelines for the diagnosis of coeliac disease in children and adolescents. An evidence - based approach. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2012;54(1):136-60.
7. Certo M, Mancini A, Fiumara C, Conte G, Valle D, Abagnale R, et al. Gastroenterologic pathology and replacement organotherapy in thyroidectomized patients. *Minerva Chir* 1993;48(21):1319-23.
8. Okosieme OE, Belludi G, Spittle K, Kadiyala R, Richards J. Adequacy of thyroid hormone replacement in a general population. *QJM* 2011;104(5):395-401.

**How to cite this article:**

Aksu O, Aydın B, Köröglü BK, Tamer MN. Atypical Celiac Disease Resistant to Thyroxine Replacement. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 527-9.



## A Psoas Abscess After Percutaneous Ethanol Sclerotherapy of Simple Renal Cyst

### Basit Böbrek Kisti Perkütan Etanol Skleroterapisi Sonrası Gelişen Psoas Absesi

Skleroterapi Komplikasyonu: Psoas Absesi / Psoas Abscess as a Sclerotherapy Complication

Tarık Yonguc, Volkan Sen, Ibrahim Halil Bozkurt, Ozgu Aydogdu, Ismail Basmacı  
Department of Urology, Izmir Bozyaka Training and Research Hospital, Izmir, Türkiye

#### Özet

Özet: Basit böbrek kistleri erişkinlerde sık görülmekle birlikte genellikle asemptomatikler. Ancak bazı hastalarda yan ağrısı, hematüri, kist rüptürü, hemoperitoneum ya da hipertansiyon gibi semptomlar gelişebilmektedir. Semptomatik böbrek kistleri çeşitli cerrahi ve perkütan yollarla tedavi edilebilirler. Perkütan skleroterapi tedavisi diğer yöntemlerle karşılaştırıldığında; daha az ağrı, kanama ve yatış süreleri nedeniyle daha sık kullanılan bir yöntem olmasına rağmen nadir de olsa lokal ya da sistemik komplikasyonlar meydana gelebilir. Bildiğimiz kadarıyla perkütan skleroterapi sonrası psoas absesi gelişen olgumuz literatürde ilk vakadır. Bu nedenle sunmaya değer bulduk.

#### Anahtar Kelimeler

Basit Böbrek Kisti; Etanol Skleroterapisi; Perkütan Skleroterapi; Perkütan Skleroterapi Komplikasyonları; Psoas Absesi

#### Abstract

Simple renal cysts are common and usually asymptomatic in adults. However some patients may experience symptoms and signs as; flank pain, hematuria, cyst rupture, hemoperitoneum or hypertension. Symptomatic renal cysts can be managed by the variety of surgical and percutaneous methods. Percutaneous sclerotherapy is more widely used compared to the other treatment methods, because of less pain, less bleeding and shorter hospitalization time. However some local and systemic complications may occur rarely. To the best of our knowledge, this is the first case with the abscess formation in retroperitoneum after percutaneous ethanol sclerotherapy in the literature.

#### Keywords

Ethanol Sclerotherapy; Percutaneous Sclerotherapy; Percutaneous Sclerotherapy Complications; Psoas Abscess; Simple Renal Cyst

DOI: 10.4328/JCAM.3422

Received: 25.03.2015 Accepted: 06.04.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 530-2

Corresponding Author: Volkan Sen, Department of Urology, Izmir Bozyaka Training and Research Hospital, Izmir, Turkey.

GSM: +905533896859 E-Mail: sen\_volkan@yahoo.com

## Introduction

Simple renal cysts are common and usually asymptomatic in adults and increases with age, with an incidence of 50% in autopsied patients over 50 years of age [1]. Although most simple renal cysts are asymptomatic; some patients may experience symptoms and signs as; flank pain, hematuria, cyst rupture, hemoperitoneum or hypertension. Symptomatic renal cysts can be managed by the variety of surgical and percutaneous methods; including percutaneous aspiration (with or without injection of a sclerosing agent), endoscopic marsupialization or excision, open surgery and laparoscopic cyst excision. Percutaneous sclerotherapy is more widely used compared to the other treatment methods because of less pain, less bleeding and shorter hospitalization time [2]. However some local and systemic complications may occur rarely. To the best of our knowledge, this is the first case with the abscess formation in retroperitoneum after percutaneous ethanol sclerotherapy in the literature.

## Case Report

A 65 years old female patient presented with a 2-month history of right flank pain. She had no hematuria, disuria or any urological symptoms. Her abdomen was unremarkable and no costovertebral angle tenderness was observed in a physical examination. Laboratory analysis revealed as a serum creatinine 0,9 mg/dl, hemoglobin 13,7 g/dl and normal urine test. A 10 cm simple cyst at the upper pole of right kidney was detected in abdominal ultrasonography (US). The association of cyst and collecting system was excluded with magnetic resonance imaging (MRI) (Figure 1). We performed percutaneous ethanol

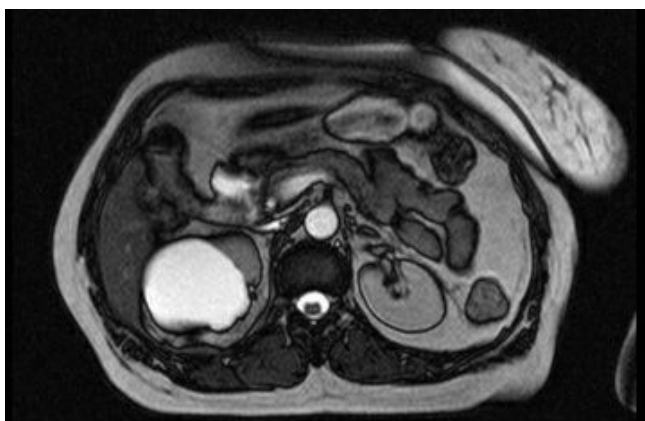


Figure 1. A 10 cm simple cyst at the upper pole of right kidney.

sclerotherapy to right renal cyst as there was a symptom of severe blunt right flank pain in the patient. Cyst puncture was done with an 18 G needle under US guidance in prone position after local anesthesia with lidocaine. The first 10 ml of aspirate was sent for cytological and biochemical examination. A pig-tail catheter was used for drainage of ethanol solution. At the end of the aspiration, 1 ml/kg (totally 80 ml) dehydrated 95% ethanol was injected into the cystic cavity. During instillation of ethanol a severe flank pain was occurred with the score 10 evaluated by visual analogue scale (VAS) scoring. Postoperative first day a pig-tail catheter was removed and the patient was discharged with anti-inflammatory drug and antibiotics. The patient presented with a severe right flank and leg pain at the second week after procedure. Right costovertebral angle

tenderness was positive in physical examination but she had no fever. The patient had difficulty in walking because of leg pain. She had leukocytosis in laboratory analysis and 90x38 mm psoas abscess was detected in US and MRI evaluations (Figure 2). Broad-spectrum intravenous antibiotics and non-steroidal



Figure 2. The psoas abscess in MRI.

anti-inflammatory drugs were given for treatment, bed rest and immobilisation of the affected leg were recommended for the patient. The patient was followed closely. The first week of after medical therapy, the size of abscess reduced and the symptoms became tolerable. The abscess was completely disappeared at postoperative third month controls.

## Discussion

Simple renal cysts are common, usually incidentally diagnosed by US or CT. Symptomatic renal cysts can be managed by a variety of surgical and percutaneous methods. The advantages of percutaneous drainage of simple renal cysts are; minimally invasiveness, well tolerability, easy administration under US guidance and no necessity for hospitalization [3]. However, simple aspiration without sclerosing agents has high recurrence and low success rates [4]. Various sclerosing agents have been used to improve the efficacy of percutaneous drainage. In this wise, the combination of drainage and sclerotherapy reduces the rate of recurrence [4].

The most commonly used sclerosing agents for percutaneous sclerotherapy are bismuth phosphate, minocycline, ethanolamine oleate, povidone iodine, ethanol and acetic acid [4,5]. They destroy the lining epithelium of the cyst and provoke local inflammation on the luminal surface of the cyst leading to the adhesion of the walls [2]. Most of the studies were done with ethanol injection and it was found to be more effective than only percutaneous drainage in renal cysts [2,4]. However with the leakage of ethanol into the surrounding tissue, the minor complications such as local tissue corrosion, pain, fever, microscopic hematuria, vagal reactions and the major complications

such as aseptic abscess, perirenal hemorrhage, arteriovenous fistula, severe central nervous system depression are possible [2,4].

In this case we presented a 90x38 mm psoas abscess with the possible nerve injury due to the mass effect of abscess. The iliohypogastric, ilioinguinal and genitofemoral nerve injury caused by percutaneous simple renal cysts with ethanol are very rare complications of the procedure [6]. The lumbar plexus is derived from the anterior rami of the L1 through L4 nerve roots. These rami pass downward and laterally along the psoas major muscle where they eventually form the plexus and divide into anterior and posterior branches in psoas major muscle. L2–L4, the posterior branches of anterior rami, become the femoral nerve, which exits from the lateral aspect of the psoas, traveling through the iliacus and under the inguinal ligament to the anterior thigh. The lumbar plexus also gives off ilioinguinal, iliohypogastric and genitofemoral nerves [7]. The leg pain and difficulty walking of our patient may be connected with this mechanism of nerve injury. Because of these complications insertion of a pig-tail catheter into the cyst and ethanol aspiration from the renal cyst after instillation was recommended but this is controversial. We prefer inserting a pig-tail catheter in the management of simple renal cysts with ethanol. The management of aseptic psoas abscess includes broad-spectrum antibiotherapy, anti-inflammatory therapy and the drainage of the abscess. We did not need to drain the abscess because there was neither fever nor sepsis symptoms. We closely followed up the patient for the possible complications. At the 3<sup>rd</sup> month abscess was resorbed and the patient was completely cured. To the best of our knowledge, this is the first report of psoas abscess caused by percutaneous simple renal cyst sclerotherapy with ethanol. Although it was seen very rare, physicians should keep in mind the possibility of this severe complication. It could be managed with broad spectrum antibiotherapies, non-steroidal anti-inflammatory drugs and/or drainage.

### Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

### References

1. Yoo KH, Lee SJ, Jeon SH. Simple renal cyst sclerotherapy with acetic acid: our 10-year experience. *J Endourol* 2008;22(11):2559-63.
2. Brown B, Sharifi R, Lee M. Ethanolamine sclerotherapy of a renal cyst. *J Urol* 1995;153(2):385-6.
3. Fontana D, Porpiglia F, Morra I, Destefanis P. Treatment of simple renal cysts by percutaneous drainage with three repeated alcohol injections. *Urology* 1999;53(5):904-7.
4. Hanna RM, Dahniya MH. Aspiration and sclerotherapy of symptomatic simple renal cysts: value of two injections of a sclerosing agents. *AJR Am J Roentgenol* 1996;167(3):781-3.
5. Holmberg G, Hietala SO. Treatment of simple renal cysts by percutaneous puncture and instillation of bismuth-phosphate. *Scand J Urol Nephrol* 1989;23(3):207-12.
6. Ashraf A, Karami MY, Amanat A. Femoral nerve injury as a complication of percutaneous simple renal cyst sclerotherapy with ethanol: a case report. *Case Rep Med* 2012(2012);589108:1-4.
7. Kincaid JC, Stewart JD. Focal peripheral neuropathies. *J Clin Neuromuscul Dis* 1999;1(2):113.

### How to cite this article:

Yonguc T, Sen V, Bozkurt İH, Aydogdu O, Basmacı İ. A Psoas Abscess After Percutaneous Ethanol Sclerotherapy of Simple Renal Cyst. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 530-2.





## Coexistence of Schizophrenia and Frontotemporal Dementia: A Case Report

### Şizofreni ve Frontotemporal Demans Birlikteliği: Bir Olgu Sunumu

Şizofreni ve Frontotemporal Demans / Schizophrenia and Frontotemporal Dementia

Zafer Subaşı<sup>1</sup>, Altan Eşsizozlu<sup>1</sup>, Ferdi Köşger<sup>1</sup>, Ali Ercan Altınöz<sup>2</sup>  
<sup>1</sup>Psikiyatri AD, Eskişehir Osmangazi Üniversitesi Tıp Fakültesi, Eskişehir,  
<sup>2</sup>Psikiyatri, Uşak Devlet Hastanesi, Uşak, Türkiye

Bu olgu 12-16 Kasım 2014 tarihinde düzenlenen 50. Ulusal Psikiyatri Kongresi'ne poster bildirisi olarak sunulmuştur

#### Özet

Bu olgu ile; yaklaşık 30 yıldır şizofreni tanısıyla izlenmekteyken son 4-5 yıldır hastalığının gidişatına kişilik ve davranış değişiklikleri eklenen, tanı karmaşası yaşanan ve sonunda şizofreni üzerine eklenen frontotemporal demans tanısı konulan bir hastanın sunulması amaçlanmıştır. Şizofreni ve benzeri psikotik bozukluk tanısı konulmuş olup hastanın klinik seyirinde daha önce görülmemiş kişilik ve davranış değişiklikleri, bilişsel işlevlerde bozulma gibi belirtilerin ortaya çıkması durumunda, nörodejeneratif hastalıklar hem ayırıcı tanıda hem de ek tanı olarak akılda tutulmalıdır.

#### Anahtar Kelimeler

Şizofreni; Frontotemporal Demans; Ayırıcı Tanı; Tanı Karmaşası

#### Abstract

With this case, it is aimed to present a patient who was followed up with a diagnosis of schizophrenia nearly 30 years, had personality and behaviour changes added to clinical course for the last 4-5 years, had diagnostic confusion and was finally diagnosed with frontotemporal dementia superimposed on schizophrenia. Neurodegenerative diseases should be considered as either differential diagnosis or coexistence in case of symptoms such as cognitive decline or personality and behavior changes occurred in the clinical course of patients diagnosed with schizophrenia and other psychotic disorders.

#### Keywords

Schizophrenia; Frontotemporal Dementia; Differential Diagnosis; Diagnostic Confusion

DOI: 10.4328/JCAM.3412

Received: 24.03.2015 Accepted: 05.04.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 533-6

Corresponding Author: Ali Ercan Altınöz, Psikiyatri, Uşak Devlet Hastanesi, Merkez, Uşak, Türkiye.

T.: +90 8502240626 E-Mail: ercanaltinoz@hotmail.com

## Giriş

Frontotemporal demans (FTD) tüm demansların %10-15'ini oluşturan, hastalığın erken dönemlerinde kişilik, davranış ve dil değişikliklerinin ön planda olduğu, erken dönemlerde bellek bozukluklarının belirgin olmadığı bir demans tipidir [1-3].

FTD, frontal ve temporal bölgelerdeki tutulum yerine göre farklı klinik tablolara neden olmaktadır. Temporal tutulum, daha çok semantik hafıza ve dil işlevlerinde bozulmaya neden olur[4, 5]. FTD vakalarında, özellikle frontal bölge tutulumlarında, kişilik ve davranış değişiklikleri, duygudurum belirtileri ve psikotik belirtiler belirtiler görülebilmektedir[6-8]. Erken dönemde sanrılar, geç dönemde mutizm, disinhibisyon, uygunsuz sosyal davranışlar, sosyal ilişkilerde bozulma, içgörü yokluğu, emosyonel ilgisizlik, stereotipik davranış ve konuşma, kişisel bakımını yerine getirmeme gibi şizofrenide de görülebilen semptomlar ortaya çıkabildiğinden FTD hastalarına psikiyatrik tanıları konulabilmektedir [3, 7-9]. FTD ve şizofreni arasındaki ilişki gerek ailesel komorbidite gerek belirti benzerliği gerekse etkilenen nöroanatomi bölgelerin yakınlığı nedeniyle araştırmalara konu olmuştur[10]. Diğer yandan FTD hastalarında, psikotik belirtiler görülebildiğinden, psikotik bozukluğu olan hastalarda daha sonradan eklenen FTD tablosu atlanabilmektedir[11].

Bu olguda; yaklaşık 25 yıldır şizofreni tanısıyla izlenmekteyken son 4-5 yıldır hastalığının kliniğine, kişilik ve davranış değişiklikleri eklenen, tanı ve tedavi ile ilgili güçlükler yaşanan, şizofreni + FTD tanısı konulan bir hastanın sunulması amaçlanmıştır.

## Olgu Sunumu

68 yaşında ilkökul mezunu kadın hasta 2013 yılı Temmuz ayında hastanemiz psikiyatri polikliniğine başvurdu.

31 yıldan beri şizofreni tanısıyla izlenmekte olduğu, ilk yakınmalarının eşinin kendisini aldattığını düşünme, evdeki perdeleri ve diğer eşyaları yırtma, sonrasında "ben yapmadım çocuklar yapmıştır" şeklinde açıklama, evdekilere bağırma ve fiziksel saldırganlık şeklinde olduğu öğrenildi. Şizofreni tanısıyla klorpromazin, biperiden ve bilgisayarına ulaşamadığımız (olasılıkla haloperidol) ilaç tedavisi almış olduğu; bu tedaviyle 10 yıl boyunca izlendiği, işlevselliği yerinde olduğu ve yatışı gerekmediği öğrenildi.

O günden bu yana yaklaşık 20 defa yatarak psikiyatrik tedavi görmüş olan hastanın genelde sinirlilik, durduk yere bağırma-ya başlama, saldırganlık, alıp başını gitme gibi şikayetleri yatışına neden oluyormuş.

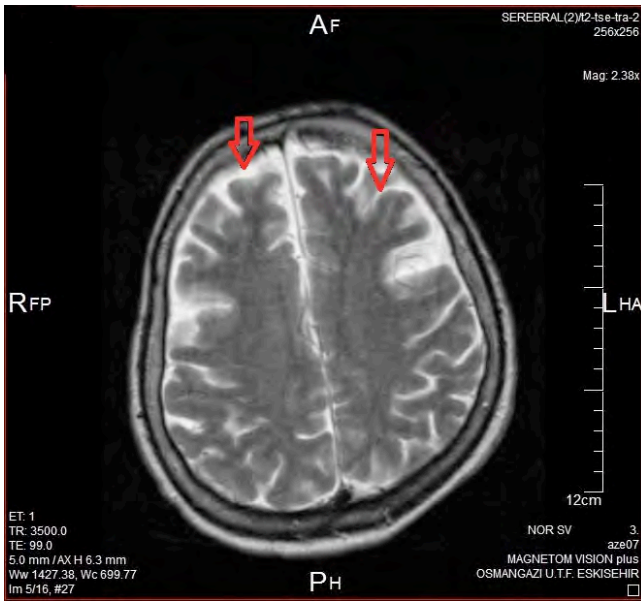
Yapılan muayenesinde kol ve bacaklarda kasılması ve ellerinde titremesinin olduğunun belirlenmesi üzerine antipsikotik kullanımına bağlı distoni, tremor ve akatizi düşünülerek hastanın kullanmakta olduğu risperidon depo 37.5 mg/15 gün tedavisi 25 mg/15 gün dozuna düşürülüp tedavisine essitalopram 10 damla/gün ve propranolol 40 mg/gün eklendi. İki ay sonra kontrol muayenesine gelen hastada çabuk ve aşırı öfkelenme, dezorganize konuşma ve davranma, stereotipik konuşma ve davranma ve ailesinin onu evden atacağı gibi paranoid sanrılarının saptanması üzerine yatarak tedavisine karar verildi. Ancak kliniğimizde yer olmadığından başka bir merkeze sevki sağlandı. Bu merkezde 18 gün yatan hastanın tedavisi, paliperidon 100 mg/ay, risperidon 3 mg/gün, olanzapin 10 mg/gün, ketiapin 200 mg/gün, propranolol 40 mg/gün, essitalopram 5 mg/gün şeklinde düzenlenmiş. Hastaneden çıkarıldığında çabuk öfkelenme şikayetinde

kısmi bir gerileme olsa da; sürekli uyuklama, özellikle kollarda ve bacaklarda titreme ve yürümede zorluk yaşama, yalnız kalmaktan korkma, kimseyle konuşmak istememe, ilaçlarını almayı ve yemek yemeyi reddetme, halsizlik yakınmalarıyla tekrar polikliniğimize getirilen hasta atipik psikoz + antipsikotik kullanımına bağlı parkinsonizm ve akatizi ön tanılarıyla kliniğimize yatırıldı. Oryantasyonu tamdı ve yeterli olmamakla birlikte kooperasyon kuruluyordu. İletişime kısıtlı bir şekilde katılan hasta sorulara kısa, bir-iki kelimelik cevaplar veriyordu. Beslenme reddi olan hasta ayakta durmakta zorlanıyordu. Algı sapması ve düşünce içeriği değerlendirilemedi. Hastanın özellikle üst ve alt ekstremitelerinde belirgin olmak üzere, gövdesi de dahil, tremoru mevcuttu. El ve ağız çevresindeki kas gruplarında diskinezisi mevcuttu. Rijiditesi de olan hastada antipsikotik kullanımına bağlı parkinsonizm ve akatizi düşünülerek aldığı tüm ilaçlar kesildi. Beslenme reddi olan hastaya dahiliye konsültasyonu sonucu parenteral beslenme düzenlendi. Tam kan sayımı, tiroid fonksiyon testleri, B12 ve folatla biyokimyasal değerleri çalışıldı. B12 vitamin değerinin düşük olduğu tespit edilmesi üzerine intramusküler B12 vitamini tedavisi başlandı. Yatışının ikinci günü oral yoldan beslenmeye başlayan hasta 10 gün boyunca psikofarmakolojik tedavi uygulanmadan izlendi. Hastanın bu dönemde görüşme taleplerini çoğunlukla reddetme, damar yolunu çekme, kalkıp gitmeye çalışma şeklinde davranışları oldu. Bu dönemde sanrı ve varsanılarının olup olmadığı değerlendirilemedi. Sık sık taburculuk isteği olan hastanın akatizi ve parkinsonizm belirtilerine yönelik olarak yatışının 10. günü biperiden tablet 2mg/gün başlandı.

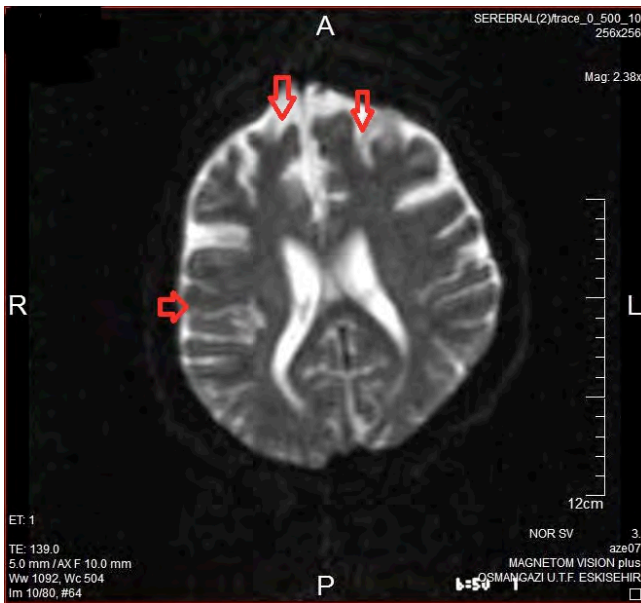
Yatışının 15. gününde hastanın uyarılara cevap vermediği ve kendisini tamamen iletişime kapattığı gözlemlendi. Nöroloji konsültasyonu sonucunda hastanın bilgisayarlı beyin tomografisi (BBT) çekildi. BBT sonucunda; hastada akut patoloji tespit edilmediği ancak beyin parankiminin frontal bölgede çok daha belirgin olmak üzere atrofik olduğu ayrıca periventriküler ve subkortikal beyaz cevherde hipoksik iskemik değişiklikler olduğu, karotis internalarda kalsifik aterosklerotik değişiklikler izlendiği belirtildi. Uyarılara yanıt vermeme ve iletişime girmeme şeklindeki klinik tablosu 24 saat sonra tamamen düzelen ve oral yoldan beslenmeye başlayan hastanın tekrar yapılan nörolojik değerlendirmesi sonucunda "yürütücü işlev bozukluğu, davranış değişikliği, hastada erken dönemde tremorun ortaya çıkması ve BBT'sinde frontal bölgede çok daha belirgin olmak üzere atrofi saptanması nedeniyle, nörodejeneratif hastalık ön tanısı düşünülerek nöroloji servisine devredildi. Hasta nörokognitif test bataryasına yeterince uyum sağlayamadığından değerlendirilemedi. Serebral manyetik rezonans (MR) tetkikinde; frontotemporal alanlarda atrofi gözlemlendiği belirtildi (Resim 1 ve 2). Nöroloji tarafından frontotemporal demans tanısı konulan hastanın tedavisi sita-lopam 40 mg/gün ve ketiapin 25 mg/gün şeklinde düzenlenerek hastaneden çıkarıldı. Şu an bu tedavi ile takipli olan hastanın saldırganlığı, küfürlü sözler söylemesi, durduk yere bağırması, ilaçlarını almak istememesi, dezorganize davranış ve konuşması devam etmektedir.

## Tartışma

Olgumuzda, özellikle son 4-5 yıl boyunca daha önceki psikotik alevlenmeler dönemlerinde ortaya çıkanlara benzemeyen davranış değişiklikleri, kendi kendine anlamsız konuşmalar, önemsiz



Resim 1. Magnetik rezonans T2 sekans görüntülemeye frontal bölgede atrofik görünüm



Resim 2. Magnetik rezonans trace görüntülemeye frontal ve temporal bölgede atrofik görünüm

sözleri tekrarlanmanın ortaya çıkması ve bu belirtilerin devamlılık kazanması sahip olduğu şizofreniye kognitif bozukluğun eklenmiş olabileceği şüphesinin uyanmasına neden olmuştur. Bu nedenle yapılan nöroloji konsültasyonu ve beyin görüntülemeleri sonucunda hastaya FTD tanısı konmuştur.

FTD ile psikiyatrik belirtiler arasındaki ilişki, FTD olan hastalarda santral sinir sisteminin hangi bölgelerinin etkilendiği üzerinden değişmektedir. Frontal bölge tutulumu bulunan hastalarda daha çok uygunsuz sosyal davranışlar, perseveratif eylemler, içgörü yokluğu, kişilik ve davranış değişiklikleri ortaya çıkmakta ve bu hastalara psikotik bozukluk tanısı konulabilmektedir[5, 8, 9, 11]. FTD'daki psikotik bozukluğu düşündürebilecek tabloya negatif belirtiler ve dezorganize davranışlar hakimdir[5]. Sağ lob frontotemporal bölge tutulumlarında ise manik ataklarda ortaya çıkan bir klinik tablo görülebilmektedir [12, 13]. Özellikle disinhibisyonun veya dezorganize davranışların baskın belirti olarak görüldüğü, kognitif bozukluk ve majör psikiyatrik bozukluk tanı ölçütlerini karşılamayan hastalarda, FTD ayırıcı tanılar

arasında mutlaka bulunmalıdır. Öncesinde daha çok psikiyatrik belirtileri bulunan ancak zamanla FTD'a özgü belirtilerin görülmeğe başlanan hastalarda, erken dönemdeki psikiyatrik belirtiler FTD'in prodromal dönemi olarak yorumlanmaktadır[6]. Sunduğumuz olguda da hastaya şizofreni tanısının konulmasına neden olan psikiyatrik belirtiler otuzlu yaşlarda başlamış, FTD tanısının konulmasına neden olan belirtiler ise altmışlı yaşlarında başlamıştır. Ancak psikiyatrik belirtilerin başlaması ile FTD'a bağlı belirtilerin başlaması arasında oldukça uzun bir süre bulunuyor olması nedeniyle baştaki psikiyatrik belirtiler, FTD'a ait prodromal belirtiler olarak değerlendirilmemiştir. Altmış yaş altında 17 hasta ile yapılan bir çalışmada, FTD tanısı konulmuş hastalardan 5'inin FTD tanısı konulmadan önce psikotik bozukluk tanısı aldığı, bu 5 hastanın psikotik belirtilerinin ortalama başlangıç yaşının 35.6 olduğu ve ortalama ölüm yaşının ise 45.4 olduğu belirlenmiştir [7]. Mendez ve arkadaşları da, genç yaşta psikotik bozukluk tanısı konulan ancak ileri yaşta FTD tanısı konulan hastalarda, psikotik bozukluk ile FTD arasında tesadüfi bir ilişki olduğunu düşündüklerini bildirmişlerdir[9].

Hastamızda ise ilk psikotik bulgular 36 yaşında paranoid, persekütif hezeyanlar şeklinde ortaya çıkmış ve son 4-5 yıla kadar dil işlevlerinde bozulma, kişilik değişiklikleri, dezorganize davranışlar görülmemiştir. Son 4-5 yıllık süreçte ise klinik tablo hızlı bir bozulma göstermiştir. Hastanın birçok davranışı daha önce konulmuş şizofreni tanısına bağlandığından ve tedaviye yanıt vermediğinden, çoklu ve yüksek dozda antipsikotik ilaç başlanmıştır. Ayırıcı tanı veya eş tanı bakımından hastanın son 4-5 yıllık kliniğindeki değişim yeterince göz önüne alınmadığından yapılan tedavi değişiklikleri ilaç yan etkilerinin ortaya çıkmasına neden olmuş ve bu durum tabloyu daha da karmaşık hale getirmiştir.

Şizofreni ve benzeri psikotik bozukluk tanısı konulmuş olup hastanın klinik seyrinde daha önce görülmemiş kişilik ve davranış değişiklikleri, bilişsel işlevlerde bozulma gibi belirtilerin ortaya çıkması durumunda, nörodejeneratif hastalıklar hem ayırıcı tanıda hem de ek tanı olarak akılda tutulmalıdır.

#### Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

#### Kaynaklar

1. Kertesz A, Blair M, McMonagle P, Munoz DG. The diagnosis and course of frontotemporal dementia. *Alzheimer Dis Assoc Disord* 2007;21(2):155-63.
2. Erkol G, Savrun FK. Frontotemporal demanslar. *Cerrahpaşa Tıp Dergisi* 2002;33(4):256-60.
3. Graham A, Hodges JR. Frontotemporal dementia. *Psychiatry* 2005;4(1):55-8.
4. Karaman Y. Frontotemporal Demanslar. *Demans Dergisi* 2002;2:48-60.
5. Pırıldar Ş, Bora E, Evyapan D, Özaşkın S. Frontotemporal demans: şizofreni benzeri psikoz tablosuyla giden bir olgu sunumu. *Bull Clin Psychopharmacol* 2001;11:116-20.
6. Onur E, Yalınay PD. Frontotemporal Demans ve Psikiyatrik Belirtiler. *Dusunen Adam: Journal of Psychiatry & Neurological Sciences* 2011;24(3):228-38.
7. Velakoulis D, Walterfang M, Mocellin R, Pantelis C, McLean C. Frontotemporal dementia presenting as schizophrenia-like psychosis in young people: clinical-pathological series and review of cases. *The British Journal of Psychiatry* 2009;194(4):298-305.
8. Grewal G, Kanagasundram S, Jambunathan S. Schizophrenia or Frontotemporal Dementia in a Young Chinese Female: A purview of possible diagnoses. *Turkish Journal of Psychiatry* 2011;22(4):266-68.
9. Mendez MF, Shapira JS, Woods RJ, Licht EA, Saul RE. Psychotic symptoms in frontotemporal dementia: prevalence and review. *Dement Geriatr Cogn Disord* 2007;25(3):206-11.
10. Harciarek M, Malaspina D, Sun T, Goldberg E. Schizophrenia and frontotemporal dementia: Shared causation? *Int Rev Psychiatry* 2013;25(2):168-77.

11. Cooper JJ, Ovsiew F. The relationship between schizophrenia and frontotemporal dementia. J Geriatr Psychiatry Neurol 2013;26(3):131-7.
12. Turan Ç, Kesebir S, Meteris H, Ülker M. Afazi, Prosopagnozi ve Mani: Semantik Demans Sağ Temporal Varyant Tanılı Bir Olgu. Turkish Journal of Psychiatry 2013;24(1):68-72.
13. Kızıl ETÖ, Özdel K, Turan ED. Frontotemporal demansa ikincil olarak ortaya çıkan bir mani olgusu. Turkish Journal of Geriatrics 2007;10(4):200-2.

**How to cite this article:**

Subaşı Z, Eşsizöğlü A, Köşger F, Altınöz AE. Coexistence of Schizophrenia and Frontotemporal Dementia: A Case Report. J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 533-6.



## Anterior Cruciate Ligament Rerupture Due to a Neglected Posterolateral Corner Injury

### Atlanmış Posterolateral Köşe Hasarı Sonrası Oluşan Ön Çarpraz Bağ Rerüptürü

Atlanmış Posterolateral Köşe Hasarı / Neglected Posterolateral Corner Injury

Gokay Gormeli<sup>1</sup>, Cemile Ayse Gormeli<sup>2</sup>, Mehmet Fatih Korkmaz<sup>1</sup>, Nurzat Elmali<sup>3</sup>, Emre Ergen<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Dept. of Orthopedics, Inonu University, Faculty of Medicine, Malatya,

<sup>2</sup>Dept. of Radiology, Inonu University, Faculty of Medicine, Malatya,

<sup>3</sup>Dept. of Orthopedics, Bezmi Alem Valide Sultan University, Faculty of Medicine, Istanbul, Turkey

#### Özet

Ön çarpraz bağ rekonstruksiyonu ortopedik cerrahide sık uygulanmaktadır. Kısa dönem sonuçları iyi olmakla beraber uzun dönem sonuçları göreceli olarak daha kötüdür. Posterolateral köşe hasarı yüksek enerjili travmalar sonucu oluşan nadir yaralanmalardır ve ön çarpraz bağ hasarı olanlarda posterolateral köşe hasarının teşhisini koymada başarısızlığa yol açar. Posterolateral köşe hasarı ön çarpraz bağ cerrahisi başarısını da olumsuz etkiler. Biz atlanmış posterolateral köşe hasarı sonrası oluşan ön çarpraz bağ rerüptürü ve ön çarpraz bağ rerüptürü ve posterolateral köşe hasarının aynı seansta rekonstrükte edildiği hastayı sunmayı amaçladık.

#### Anahtar Kelimeler

Ön Çarpraz Bağ; Diz; Posterolateral Köşe Yaralanması

#### Abstract

Anterior cruciate ligament reconstruction is performed frequently in orthopaedic surgery. The short-term results of the reconstruction is good but has relatively poorer long-term results. Posterolateral corner injuries of the knee are rare injuries that result from high-energy trauma and failure to diagnose a posterolateral corner injury in patients with a tear of the anterior cruciate ligament. Posterolateral corner injuries negatively affect the success of the anterior cruciate ligament reconstruction. We aimed to present a case with an anterior cruciate ligament rerupture due to a neglected posterolateral corner injury and revision of the anterior cruciate ligament rerupture and posterolateral corner reconstruction in a single session.

#### Keywords

Anterior Cruciate Ligament; Knee; Posterolateral Corner Injury

DOI: 10.4328/JCAM.3407

Received: 21.03.2015 Accepted: 06.04.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 537-9

Corresponding Author: Mehmet Fatih Korkmaz, Department of Orthopaedics and Traumatology, Inonu University School of Medicine, Malatya, Turkey.

T.: +90 4223410660 (5103) F.: +90 4223410036 E-Mail: fatih.korkmaz@inonu.edu.tr

**Introduction**

Anterior cruciate ligament (ACL) reconstruction is performed frequently in orthopaedic surgery for restoring the knee stability . The short-term results of the procedure are good to excellent in 75–97% of patients . However, 11–30% of the cases had relatively poor outcomes, with an over 15% persistent pivot-shift of these cases. Many factors affect the outcome of ACL surgery. One important factor for the ACL reconstruction failure is associated posterolateral corner(PLC) injuries of the knee that are untreated or unrecognised. Failure to recognise a posterolateral injury may cause instability with normal gait, and may result a varus-thrust pattern. Some studies showed that a deficiency of the posterolateral structures of the knee may increase the risk of failure by increasing varus load on the ACL graft [1]. Consequently, missing a posterolateral injury can affect the outcome of ACL reconstruction.

PLC injuries are not common and result from high-energy trauma with hyperextension and varus or external rotation forces affecting the knee cause posterolateral rotatory instability and posterolateral tibial subluxation. These injuries often occur with injury to the anterior or posterior cruciate ligament and these concomitant injuries make an accurate diagnosis and the subsequent management challenging . The diagnosis of a PLC injury can be elusive, and is called as the “dark side” of the knee because of the anatomical complexity. The failure to diagnose and treat a PLC injury for patients with ACL tear can increase the varus load on the ACL graft and negatively affects the success of the reconstruction of the ACL [2].

This article reports an ACL rerupture due to a neglected PLC injury and revision of the ACL rerupture and posterolateral corner reconstruction in a single session.

**Case Report**

A 24-year-old female sustained a right tibial plateau and supracondylar humeral fractures in a traffic accident 2 years earlier, and was treated surgically. At follow-up, a left ACL rupture was detected and an arthroscopic transtibial ACL reconstruction was performed. At the 1-year follow-up, the anterior drawer test was positive and she was referred to our clinic with rerupture. In the physical examination, the Lachman, anterior drawer, external rotation genu recurvatum, and dial tests were positive. The patient had 2+ opening to varus stress at full extension and at 30°. There was no neurovascular deficit. Bilateral standing knee anteroposterior and lateral x-rays were normal and there was no malalignment on lower extremity axis radiographs. Magnetic resonance imaging showed ACL rupture and a posterolateral corner injury. (Fig. 1-2)



Figure 1. Total rupture of lateral collateral ligament on coronal short tau inversion recovery (STIR) (a) and coronal T2 weighted image (b).



Figure 2. Total rupture of biceps femoris tendon on coronal T2 weighted image (a) and ACL rupture on sagittal STIR image (b).

The ACL was reconstructed using an anatomical single-bundle technique with a tibialis anterior allograft. Anteromedial, anterolateral, and far anteromedial portals were used for this technique. The optimal position of the far anteromedial portal was established by using spinal needle. It was located as far medial as possible with considering to prevent any risk of medial femoral condyle and with the low position considering to avoid any damage of the medial meniscus anterior horn. Marking was done with a microfracture awl (Chondral Pick; Arthrex, Naples, FL, USA) to the the femoral insertion of the ACL by using a free-hand technique with visualising the remnant fibres of the ACL. The femoral tunnel was drilled with a reamer according to diameter of the graft. The tibial guide was set at 55° and tibial tunnel drilled. The tip of the tibial aimer positioned medial of the centre of the ACL’s tibial attachment and 3 mm anterior to the posterior border of lateral meniscus anterior horn. The graft was passed from the tibial and femoral tunnel and then fixed with interference screws. Then, the knee joint evaluated for the tension of the graft and position of the tibial fixation device to ensure that it did not protrude into the joint. The knee was tested with the anterior drawer and Lachman tests.

The posterolateral corner was reconstructed using the technique described by Laprade et al. [3] An Achilles tendon allograft was used to create two grafts. One of the graft used for reconstructing the popliteofibular ligament and lateral collateral ligament. The other allograft was used for reconstructing of the popliteus tendon. The grafts were fixed with interference screws into the femur, tibia, and fibula. (Fig. 3)

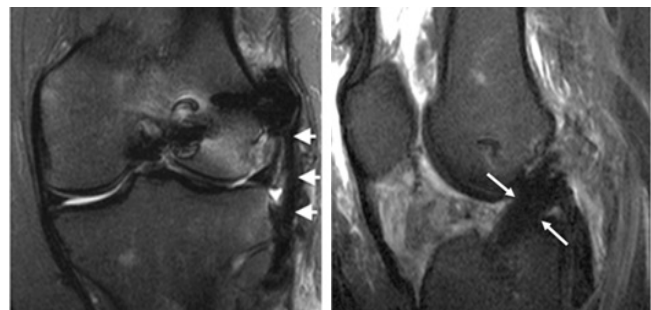


Figure 3. Postoperative posterolateral corner reconstruction on coronal STIR image (a) and ACL graft on sagittal STIR image (b).

A varus/valgus stabilising brace was applied with the first postoperative day and the grafts were protected by immobilisation for the first 4 weeks after the surgery. Patella mobilisation and isometric quadriceps-strengthening exercises and mobilisation were initiated. Weight-bearing was allowed as tolerated. Four weeks postoperatively, knee flexion was permitted as tolerated.

At 6–8 weeks after the surgery closed-chain kinetic exercises were began. Stationary cycling, single-leg stance, stair-stepping were allowed at 10–12 weeks. Fast walking and swimming were allowed at 5 months after surgery. Returning to full activity was let at 6 months postoperatively.

## Discussion

PLC injuries of the knee are not common and can cause disability due to an instability. These injuries may be associated with anterior or posterior cruciate ligament injuries. Approximately 7.5–11% of ACL tears are with posterolateral corner injuries, but most are unrecognised and untreated, resulting with failure of the reconstruction of the ACL [4]. The outcomes of anatomical posterolateral reconstruction were satisfactory when diagnosed and treated.

The popliteofibular ligament, popliteus tendon, and lateral collateral ligament are main stabilisers of the PLC. Fibular collateral ligament is the primary static stabiliser for varus opening of the knee and prevents varus instability at the initial 0–30° of flexion of the knee. The popliteus muscle and tendon complex provide static and dynamic stabilisation to posterolateral rotation of the knee. The popliteofibular ligament is an important stabiliser of external rotation. The iliotibial band is important for preventing varus opening with posterolateral knee injuries [5].

Many surgical techniques for PLC reconstruction were reported. We think that anatomical reconstruction is more effective at restoring of the stability and regaining the knee motion at the postoperative period. PLC reconstruction technique described by LaPrade et al. [3] is closest to the native situation. By reconstructing the fibular collateral ligament, popliteofibular ligament and popliteus tendon based on their attachment anatomy, the surgeon is able to restore stability for external rotation and varus forces.

Biomechanical studies showed that the PLC structures of the knee functionally interact with the posterior and anterior cruciate ligaments. LaPrade et al. [6] examined the force on ACL grafts of cadaver knees with cut posterolateral structures and found that grade III PLC injuries led to the increased force on the grafts of the ACL. Markolf et al. [7] found an increased force on the ACL with after cutting the PLC structures of the knee. Zantop et al. [8] found that, the fibular insertion of the fibular collateral ligament is tightened and moved anteriorly with internal rotation. Consequently, neglected posterolateral injuries of the knee can cause an increased varus load, which causes graft failure, such as in our case. Therefore, when knee instability occurs, a carefully history and detailed physical examination must be performed to avoid missing a diagnosis of injured ligaments. Injured PLC can be reconstructed in the same session when the reruptured ACL is reconstructed.

## Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

## References

1. Kamath GV, Redfern JC, Greis PE, Burks RT. Revision anterior cruciate ligament reconstruction. *Am J Sports Med* 2011;39(1):199-217.
2. Bonanzinga T, Zaffagnini S, Grassi A, Marcheggiani Muccioli GM, Neri MP, Maricci M. Management of Combined Anterior Cruciate Ligament-Posterolateral

Corner Tears: A Systematic Review. *Am J Sports Med* 2013;42(6):1496-503.

3. LaPrade RF, Johansen S, Wentorf FA, Engebretsen L, Esterberg JL, Tso A. An analysis of an anatomical posterolateral knee reconstruction: an in vitro biomechanical study and development of a surgical technique. *Am J Sports Med* 2004;32(6):1405-14.

4. Kim SJ, Choi DH, Hwang BY. The influence of posterolateral rotatory instability on ACL reconstruction: comparison between isolated ACL reconstruction and ACL reconstruction combined with posterolateral corner reconstruction. *J Bone Joint Surg Am* 2012;94(3):253-9.

5. Terry GC, LaPrade RF. The posterolateral aspect of the knee: anatomy and surgical approach. *Am J Sports Med* 1996;24:732-9.

6. LaPrade RF, Resig S, Wentorf F, Lewis JL. The effects of grade III posterolateral knee complex injuries on anterior cruciate ligament graft force. A biomechanical analysis. *Am J Sports Med* 1999;27:469-75.

7. Markolf KL, Graves BR, Sigward SM, Jackson SR, McAllister DR. How well do anatomical reconstructions of the posterolateral corner restore varus stability to the posterior cruciate ligament-reconstructed knee? *Am J Sports Med* 2007;35:1117-22.

8. Zantop T, Schumacher T, Diermann N, Schanz S, Raschke MJ, Petersen W. Anterolateral rotational knee instability: role of posterolateral structures. *Arch Orthop Trauma Surg* 2007;127:743-52.

## How to cite this article:

Gormeli G, Gormeli CA, Korkmaz MF, Elmali N, Ergen E. Anterior Cruciate Ligament Rerupture Due to a Neglected Posterolateral Corner Injury. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 537-9.



## Patients with Chiari Malformation Type 2 in VP Shunt Rare Complication

### Chiari Tip 2 Malformasyonu Olan Olguda Nadir Görülen VP Shunt Komplikasyonu

VP Shunt Komplikasyonu / VP Shunt Complication

Tarık Akman<sup>1</sup>, Mustafa Güven<sup>1</sup>, Adem Bozkurt Aras<sup>1</sup>, Öztekin Çıkman<sup>2</sup>, Özbey Şafak<sup>1</sup>, Öznur Karaaslan<sup>1</sup>, Canan Akman<sup>3</sup>, Murat Coşar<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Beyin ve Sinir Cerrahisi AD, Çanakkale 18 Mart Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Çanakkale,

<sup>2</sup>Genel Cerrahi AD, Çanakkale 18 Mart Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Çanakkale,

<sup>3</sup>İlk Acil ve Yardım Servisi, Kanuni Sultan Süleyman Eğitim ve Araştırma Hastanesi, İstanbul, Türkiye

#### Özet

VP shuntin sebep olduğu spontan barsak perforasyonu çok nadir görülen bir komplikasyon olup, farkedilmez ise ölümcül seyrederek. Bu olgumuzda iki sene önce VP shunt distal uc revizyonu yapılan ayrıca infant döneminde meningomyeloseksizyonu olan Chiari malformasyonu Tip 2' li vakada, laparoskopik olarak tespit edilen transvers kolon splenik fleksura düzeyinde nadir görülen spontan barsak perforasyonu sonrası peritoneal kataterin anal prolapsusu sunulmuştur.

#### Anahtar Kelimeler

Anal Prolapsus; Chiari Malformasyonu; VP Shunt

#### Abstract

Spontaneous perforation of the bowel caused by VP shunt is a very rare complication, and if unnoticed will be fatal. Two years previously our case with Chiari malformation type 2 had revision of the distal end of the VP shunt and also myelomeningocele excision at the end of the infant period. The case was examined laparoscopically and found to have rare spontaneous intestinal perforation at the transverse colon splenic flexure level, followed by anal prolapse of the peritoneal catheter.

#### Keywords

Anal Prolapse; Chiari Malformation; VP Shunt

DOI: 10.4328/JCAM.3429

Received: 28.03.2015 Accepted: 14.04.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 540-3

Corresponding Author: Tarık Akman, Beyin ve Sinir Cerrahisi AD, Çanakkale 18 Mart Üniversitesi, Araştırma ve Uygulama Hastanesi, Kepez, Çanakkale, Türkiye.

GSM: +905322150627 F.: +90 2862635956 E-Mail: tarkakman@yahoo.com.tr



## Introduction

Chiari malformation was described by Hans Chiari in 1891 as translocation of posterior fossa structures into the spinal canal. After Arnold reported a child with hindbrain prolapsed as well as myelomeningocele, it was named the “Arnold-Chiari malformation”. It is a congenital anomaly that may also be seen to be acquired [1].

In Chiari malformation type 2, different to type 1, the medulla and 4th ventricle have changed places toward the caudal, and this syndrome is frequently accompanied by spinal and cerebral anomalies. This syndrome may occur together with myelomeningocele, meningocele, hydrocephalus, syringomyelia and many bone anomalies [2].

Treatment of Chiari malformation type 2 is posterior fossa decompression with meningocele or myelomeningocele excision in the same session. Additionally VP shunt surgery for hydrocephalus or endoscopic third ventriculostomy may be added, depending on the case [3].

VP shunt application is one of the standard methods to treat hydrocephalus, and complications accompanying this treatment may be listed as obstruction or disconnection of the proximal or distal end of the VP shunt, malfunction of the VP shunt reservoir system, CSF accumulation, overdrainage of VP shunt and formation of slit ventricle or subdural collection, VP shunt infection, intestinal obstruction, bowel perforation, VP shunt migration, and perforation of internal organs and important veins [4]. Colon perforation is very rare, only seen in less than 0.1% of patients. The mortality rate linked to colon perforation is about 15%. The duration between VP shunt insertions and anal prolapse varies from 2 months to 7 years. Initial symptoms are meningitis following shunt infection, acute abdominal findings, seizures, fever and increased intracranial pressure findings linked to shunt failure. Colon perforation may be observed without peritonitis or acute abdominal findings [5].

Our case had myelomeningocele excision and VP shunt system inserted for hydrocephalus in the infant period. After revision of distal end of the VP shunt about 2 years previous, the case developed very rare transverse colon perforation at the splenic flexure level and anal prolapse of the distal VP shunt. Laparoscopically-aided total removal of the VP shunt system surgically and their post operative treatment is presented.

## Case Report

A 14-year old patient monitored for Arnold-Chiari malformation type 2 applied to the emergency service due to abdominal pain for the previous week, with nausea and vomiting increased and a white foreign object observed in the anal region in the previous two days. The female patient was admitted for advanced examination and treatment and was taken for emergency operation after imaging tests, routine and culture laboratory tests and requested consultations. The case's infection markers (Sedim: 85/100, CRP: 35, Leukocyte: 15.000/mm<sup>3</sup>) were high and temperature was subfebrile.

The operation in addition to both cranial and peritoneal incisions would check the abdomen in the same session, aiming to visualize the bowel perforation track by laparoscopic incisions by general surgeon. With the aid of laparoscopic abdominal surgery, firstly the perforation of the transverse colon at the level

of the splenic flexure was observed, and no clear abscess or pseudocyst formation was observed in the abdomen. Later the proximal ventricular catheter tip and reservoir was accessed in the cranium while the distal catheter tip was accessed in the peritoneum. The VP shunt system was fully disconnected, and the distal and proximal VP shunt parts removed as single pieces were sent for culture. As the same case had revision of the distal end of the VP shunt on the right side due to intestinal abscess and pseudocyst formation two years previously, in the same session CSF was checked for meningitis, abscess and hydrocephalus risk. For monitoring a burr hole was opened at the right frontal Kocher point and an external ventricular drainage system was provided. CSF was sent to microbiology. After primary repair of perforation laparoscopically, a drain was placed in the operation site. After hemorrhage control, the layers were anatomically sutured, as before the operation the cases lower extremities were paraplegic and she was extubated and left the operating room.

In the post operative period after requested consultations with the Infectious Diseases and Pediatric Disease departments, urine culture found *Escherichia coli*, blood culture found *Staphylococcus epidermidis* while VP shunt catheter culture found *Pseudomonas aeruginosa*. According to antibiogram results intravenous combined antibiotherapy (vancomycin+ meropenem +cephazolin) was completed in 15 days. After removing sutures and when CSF culture produced no microbiology the case was discharged. (Figure 1,2,3,4).



Figure 1. Pre operative abdominal X-Ray

## Discussion

Bowel perforation by the peritoneal catheter of VP shunt is a very rare situation. The first case was recorded in 1996. Perforation may occur in any segment of the gastrointestinal system; generally the colon is the most frequently perforated region. The majority of cases are asymptomatic, and the catheter may

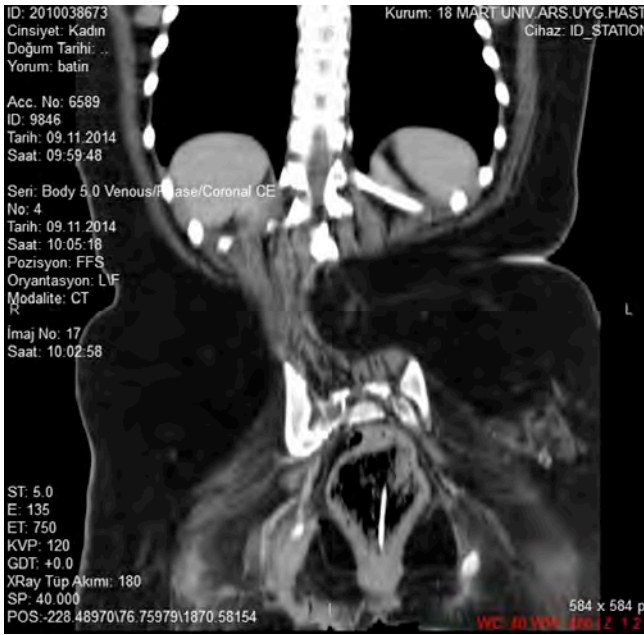


Figure 2. Pre operative abdominal CT



Figure 3. Pre operative abdominal CT

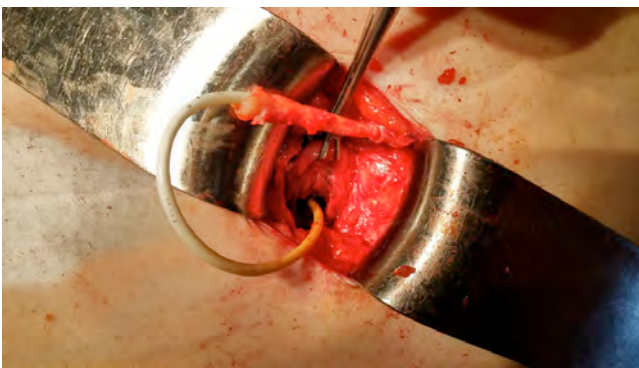


Figure 4. Appearance of distal end of VP shunt from the perforated colon

protrude from the anus. After perforation the mortality rate is relatively high at 15-19% [6].

The etiology of bowel perforation is not fully clear. It is thought that local inflammatory reactions and fibrosis around the distal catheter may cause it to adhere to an area of the bowel, and

puncture the bowel with a stabbing effect [7].

It is known that previous abdominal surgery and adhesions may cause the catheter to be caught in a certain region, and form a risk of corroding the colon wall. Additionally myelomeningocele and congenital hydrocephalus patients are more prone to perforation due to weakened intestinal walls linked to weakened innervation.

Protrusion of the catheter from the anus makes diagnosis easy. Apart from this, for patients with abdominal complaints, meningitis, infection findings on the skin along the catheter pathway, and catheter failure, internal organ perforation should be considered.

When there is intestinal perforation linked to VP shunt, nausea, vomiting, peritoneal findings and intraabdominal abscess may develop. After perforation severe peritonitis develops. Patients with VP shunt and meningitis or ventriculitis caused by enteric microorganisms should be investigated for intestinal perforation.

There are three ways to remove VP shunt; through the anus, endoscopically and surgically. Using laparoscopy, a minimally invasive surgical method, allows diagnostic laparoscopy and correction of complications linked to the catheter.

After the VP shunt catheter is removed, external ventricular drainage and antibiotic treatment is very important for the case, with repeated use of the peritoneum one of the controversial topics [8].

In conclusion, our case had definite diagnosis as the distal catheter of the VP shunt protruded from the anus and was immediately taken for surgery. Laparoscopically the site of perforation was identified and primary repair undertaken. The VP shunt system was completely disconnected with the distal part removed through the anus. To allow monitoring of CSF, in the same session external ventricular drainage was given and according to the results of catheter, urine, blood and CSF cultures and antibiograms, combined intravenous antibiotic treatment was administered. On the fifth day the external drainage system was removed and on the fifteenth day CSF microbiology, biochemistry and infection markers were normal. All sutures were removed and the case was discharged with general situation stable. We believe these types of cases require a multidisciplinary approach.

#### Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

#### References

- Dağtekin A. Pediatrik olgularda VP şantın nadir bir komplikasyonu. Ege Journal of Medicine 2011;508(1):65-8.
- Seyithanoğlu MH. VP şantın geç komplikasyonu. Türk Nöroşirürji Dergisi 2011;21(1):269-73.
- Borçek AO. An unusual ventriculoperitoneal shunt complication. Turk Neurosurg 2012;22(2):261-4.
- Martinez P, Barrera C, Vilanueva E, Zavala MJ. Colonic perforation as a complication of ventriculoperitoneal shunt. Tech Coloproctol 2006;10(4):353-5.
- Vinchon M, Baroncini M, Laurent T, Patrick D. Bowel perforation caused by peritoneal shunt catheters. Neurosurgery 2006;58(1):76-82.
- Erol PS, Kazez A, Kaplan M, Özveren MF. Ventrikulo-peritoneal şantın anüsten protrüzyonu. Türk Nöroşirürji Dergisi 2001;11(2):68-71.
- Başaklar AC, Baykaner K, Türkyılmaz Z, Sönmez K, Kale N. Rectal extrusion of ventriculoperitoneal shunt without abdominal signs. Gazi Medical Journal 1995;6(2): 199-202.
- Akcora B, Serarslan Y, Sangün O. Bowel perforation and transanal protrusion of a ventriculoperitoneal shunt catheter. Pediatr Neurosurg 2006;42(2):129-31.

**How to cite this article:**

Akman T, Güven M, Aras AB, Çıkman Ö, Şafak Ö, Karaaslan Ö, Akman C, Coşar M. Patients with Chiari Malformation Type 2 in VP Shunt Rare Complication. J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 540-3.



## Titanium Implant Medialization Laryngoplasty Application in the Case of a Silicone and Gore-Tex Extrusion

### Bir Silikon ve Gore-Tex Ekstrüzyon Olgusunda Titanyum İmplant Medializasyon Laringoplasti Uygulaması

Titanyum İmplant Medializasyon Laringoplasti / Titanium Implant Medialization Laryngoplasty

Salih Bakır<sup>1</sup>, Mehmet Akdağ<sup>2</sup>, Aylin Gül<sup>2</sup>, Beyhan Yılmaz<sup>2</sup>, Engin Şengül<sup>2</sup>  
<sup>1</sup>KBB Dal Merkezi, Özel Akademi, <sup>2</sup>KBB Hastalıkları ABD, Dicle Üniversitesi Tıp Fakültesi, Diyarbakır, Türkiye

#### Özet

Günümüzde medializasyon laringoplasti (ML) cerrahi tekniği standardize edilmiş olsa da, ideal bir implant henüz iyi tanımlanmamıştır. Otojen kıkırdak, silikon, hidroksilapatit, Gore-tex ve titanyum gibi çeşitli non-absorbabl maddeler ML için kullanılmıştır. Bunlardan titanyum implant ML yeni bir tekniktir, bununla ilgili şimdiye kadar herhangi bir komplikasyon bildirilmemiştir. Gore-tex ve silikon implantlar ise daha uzun bir geçmişe sahiptir, her ikisi de güvenli ve kullanımı kolay kabul edilir. Gore-tex veya silikonla yapılan ML sonrası bu maddelerin ekstrüzyonu nadiren bildirilmiştir. Bu yazıda önce silikon, sonra Gore-tex implant ekstrüzyonu görülen 38 yaşındaki bir erkek olgu sunuldu. Bu hastaya titanyum implant uygulandı. Az görülmele birlikte, ML sonrası silikon ve Gore-tex ekstrüzyon olasılığı göz ardı edilmemelidir. Bu tür olgularda titanyum implant iyi bir alternatif olabilir.

#### Anahtar Kelimeler

Medializasyon Laringoplasti; Tiroplastisi; Gore; Tex; Titanyum İmplant; Komplikasyon

#### Abstract

Though the surgical technique of medialization laryngoplasty (ML) has been standardized today, the ideal implant has not been well-defined yet. Various non-absorbable materials such as autogenous cartilage, silicone, hydroxylapatite, Gore-tex, and titanium have been used for ML. Titanium implant ML is a new technique and any complication has not been reported so far. Gore-tex and silicone implants have been used more longer and both of them are accepted safe and easy to handle materials. Extrusion of Gore-tex or silicone material after ML has been rarely reported. We present a case of a 38-year-old man with history of silicone and then Gore-tex implant extrusion after ML. Titanium implant was performed on the patient. Although rare, the possibility of silicone and Gore-tex extrusion after ML operation must not be ignored. Titanium implant may be a good alternative in such cases.

#### Keywords

Medialization Laryngoplasty; Thyroplasty; Gore; Tex; Titanium Vocal Fold Medializing Implant; Complication

DOI: 10.4328/JCAM.3481

Received: 03.04.2015 Accepted: 14.04.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 544-7

Corresponding Author: Salih Bakır, KBB Dal Merkezi, Özel Akademi, 21280, Diyarbakır, Türkiye.

T.: +90 4122488001-4543 F.: +90 4122488440 GSM: +905365670033 E-Mail: drsalihbakir@gmail.com

## Giriş

Medializasyon tiroplastisi yada laringoplastisi (ML), başta tek taraflı vokal kord paralizilerinin tedavisi olmak üzere günümüzde oldukça popüler ve etkin olarak uygulanan bir cerrahidir fakat kullanılacak olan materyal hala tartışmalıdır. Otojen kıkırdak, Gore-tex (politetrafloroetilen), silikon, hidrosilapatit ve titanyum implant, ML için kullanılmış olan materyallerdir [1,2]. Gore-tex ve silikon, günümüzde hala sıklıkla kullanılan ve iyi tolere edildiği kabul edilen malzemelerdir. Bu maddelerin ekstrüzyonu (sabitlenmiş olan yerlerinden ayrılmaları) cerrahi sonrasında görülme olasılığı en yüksek komplikasyon olmakla birlikte bildirilen olgu sayısı oldukça azdır [3-7]. Bu yazıda silikon ve Gore-tex maddeleri ile ML uygulanıp ekstrüzyona uğramış, bunun üzerine titanyum implantla ML yapılan bir olgu sunulmuştur.

## Olgu Sunumu

Otuzsekiz yaşındaki erkek hastaya, 1989 yılında geçirdiği trafik kazası sonrasında gelişen ses kısıklığı şikayeti ile başvurduğu bir klinikte sol ses telinde felç olduğu bildirilmiş. Bunun üzerine, 2000 yılında silikon implant kullanılarak ML uygulanmış. Cerrahi işlem sonrasında yeterli bir sese kavuşan hasta, 6 yıl sonra ses kalitesinin giderek azalması ve giderek artan solunum sıkıntısı nedeniyle tekrar opere edildiği merkeze başvurmuş. Hastanın silikon implantı, yerinden ayrıldığı ve hava yolunda tıkanmaya yol açtığı söylenerek, 2006 yılında çıkarılmış (Resim 1). Ses

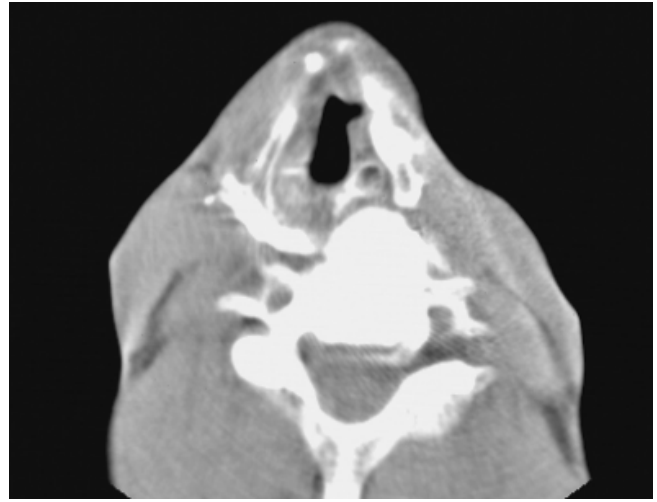


Resim 1. Hastanın halen sakladığı ve solunum sıkıntısına yol açtığı için çıkarılan silikon implant

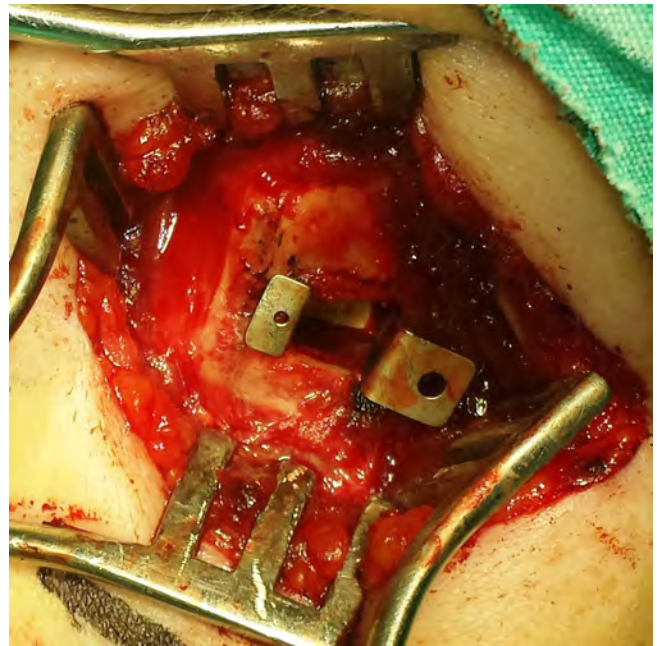
kısıklığından çok muzdarip olan hastaya, yine aynı klinikte 2013 yılında bu sefer Gore-tex uygulanmış. Ancak ameliyattan hemen sonraki aylarda sesinde herhangi bir düzelme görülmeyen ve muhtemelen operasyon bölgesinde medikal tedavilerle kontrol altına alınmaya çalışılmış birkaç kez farklı şiddetlerde iltihaplanma (kızarıklık ve bazen pürülan akıntı) şikayetleri nedeniyle daha da sesinin kısılmasından yakınan hasta kliniğimize başvurdu. Başvuru sırasında muayene bulgularında herhangi bir enfeksiyon bulgusuna rastlanmadı. Geçirdiği trafik kazası sonrası açılan trakeostomiye, iki kez yapılan ML'ye ve bir kez silikon çıkarılması amacıyla yapılan operasyonlara ait hastanın boyun bölgesinde yaygın skar dokuları mevcuttu (Resim 2). Sol vokal kordun paralizik ve rima açıklığının 4-5 mm olduğu görüldü. Bilgisayarlı tomografide inefektif olan Gore-tex gözlemlendi (Resim 3). Hastanın algısal ve objektif ses analizlerinde belirgin disfoni olması ve tekrarlayan enfeksiyon öyküsü nedeniyle Gore-tex'in çıkarılması planlandı. Lokal anestezi altında yapılan cerrahi müdahale sırasında Gore-tex çıkarıldıktan sonra enflamasyon veya gra-



Resim 2. Hastanın operasyon sahasının görünümü

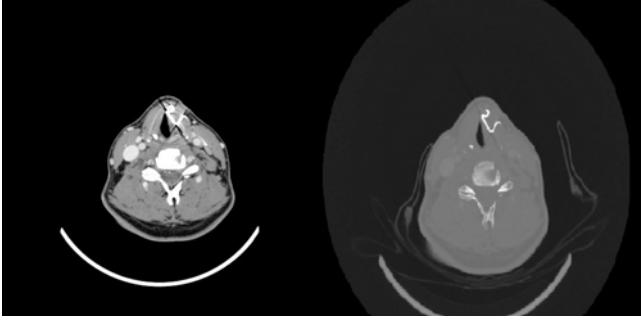


Resim 3. Gore-tex implantın bilgisayarlı tomografide görünümü

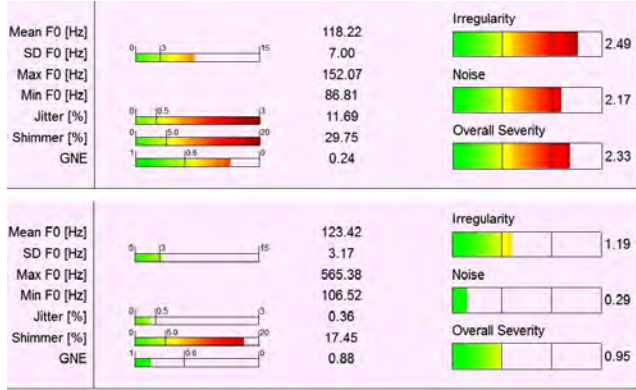


Resim 4. Titanyum implant

nülayona rastlanmadı ancak iç perikondriumun hasarlı ve bütünlüğünün olmadığı görüldü. Titanyum implant ile ML'nin faydalı olabileceği düşünülerek aynı seansta uygulandı (Resim 4,5). Takipleri düzenli olarak yapılan hastanın 18. ay sonundaki kontrollerinde de komplikasyona rastlanmadı ve ses kalitesinde belirgin düzelme gözlemlendi (Resim 6).



Resim 5. Titanium implantın bilgisayarlı tomografide görünümü



Resim 6. Hastanın titanium implant ML öncesi (üstte) ve sonrası (altta) ses analizinin görünümü

## Tartışma

Young [8] tarafından 2010 yılında sunulan ve 1707 KBB hekiminin anket verilerinin değerlendirildiği ML sonrası sonuçları ve komplikasyonları derleyen çalışmaya göre, ML sonrası genel komplikasyon oranı % 15, ekstrüzyon oranı % 0.8 olarak bildirilmiştir. Yine bu çalışmaya göre ML uygulanma sıklığı her geçen gün artmakla birlikte ML cerrahisinde uygulanacak olan materyal hala tartışmalıdır. Bu tartışmaların odak noktasında iyi bir ses kalitesinin sağlanması yanında, uygulama kolaylığı ve süresi ve olası komplikasyon sıklığının az olması da yer almaktadır. Bu komplikasyonlardan biri de ekstrüzyondur. Günümüzde en sık kullanılan ve iyi tolere edildiği kabul edilen Gore-tex ve silikon maddelerinin ekstrüzyonu cerrahi sonrasında görülme olasılığı en yüksek komplikasyon olmakla birlikte [4], bildirilen olgu sayısı oldukça azdır. Gore-tex, vokal kordun medializasyonunda 1998 yılından beri kullanılmaktadır [1]. Bu yumuşak maddenin uygulanması ve gerektiğinde çıkarılması kolaydır. Gore-tex ile ML, oldukça güvenli ve etkin kabul edilmekle beraber, başta ekstrüzyon olmak üzere dispne, enfeksiyon ve erken dönemde hematoma gibi çeşitli komplikasyonlar bildirilmiştir [1,3,4,7]. Ekstrüzyonun en önemli sebebi olarak Laccourreye [3], iç perikondriumun aşırı elevasyonu veya hasar görmesini suçlamıştır. Ekstrüzyon sonucu, başlangıçta elde edilmiş olan ses kalitesi kaybedilebilir veya hava yolu obstrüksiyonu görülebilir [7]. Gore-tex ile ML'yi ilk uygulayan kişi olan McCulloch ve ark.'nın [1] 16 olguluk serisinde ekstrüzyondan bahsedilmeyenken, 2 dispne olgusu bildirmiş, birinde trakeotomi gerekmiştir [1]. Cashman ve ark.'nın [9] tavşanlar üzerinde yaptığı çalışmalarda Gore-tex'in biouyumluğunun çok iyi olduğu, hiçbir olguda ekstrüzyon ve migrasyon görülmediği bildirilmiştir. Gore-tex ile ML sonrası gelişen ekstrüzyon ile ilgili ilk olgu, 2003 yılında Laccourreye [3] tarafından rapor edilmiştir. 1998-2002 yılları arasında 27 olgunun değer-

lendirildiği bu çalışmada bir olguda 49 ay sonra ekstrüzyon görülmüştür. Etiyolojisinde kardiyak cerrahi öyküsü olan bu hastada ekstrüzyona sebep olarak iç perikondriumun kaldırılmış olması ve sütürle tiroid laminaya yapılan tesbitin yetersizliği suçlanmıştır. Mohanty ve ark.'nın [6] 47 olgu içeren çalışmasında sadece bir olguda ikinci haftada ekstrüzyon gözlenmiştir. Bu olgunun etiyolojisine baktığımızda bu sunudaki olguya benzer şekilde travma öyküsü olduğu görülmektedir. Üstündağ ve ark. [10], yaptıkları deneysel çalışmada, ML cerrahisinde sık kullanılan bir diğer madde olan silikonun, Gore-tex'e göre ML için daha uygun olduğunu iddia etmiştir. Tavşanlarda yapılan bu histopatolojik çalışmada silikon uygulanmış tavşanlarda daha iyi fibröz kapsül oluşumu, daha az alerjik reaksiyon ve inflamatuvar yanıt gözlenmiştir. Fakat Halum ve ark. [4] 5 ekstrüzyon olgusunu içeren çalışmasında, 2 olguda ekstrüzyon sebebinin Gore-tex, 3 olguda ise silastik implant olduğunu bildirmiştir. Gore-tex ve silastik implanta göre daha yeni bir yöntem olan titanium implant, 1999 yılında Gerhard Friedrich tarafından tanıtılmış olan ve hazır şekillendirilmiş materyal olması nedeniyle operasyon süresinin çok daha kısaldığını iddia eden bir yöntemdir [2]. Titanium implant uygulaması ile ilgili en geniş seri ve en uzun süreli takip Stickler ve ark. tarafından rapor edilmiştir. Bu çalışmada 123 hasta ortalama 57 hafta takip edilmiş, hiçbir olguda ekstrüzyon bildirilmemiştir. Ancak 3 olguda 2-6 ay içinde gelişen granülasyon dokusu nedeniyle implant çıkarılmıştır [11].

ML sonrası implant ekstrüzyonu haftalar yada yıllar içinde meydana gelebilir [3,6]. Ekstrüzyonunun sebebi, implantın doğru yerine yerleştirilememesi ve cerrahin tecrübesindeki yetersizliktir [3,4]. İç perikondriumun korunması ekstrüzyonu engellemek için son derece önemlidir [3]. Ekstrüzyon durumunda en sık semptom disfoniye, daha az olarak dispne, inatçı öksürük ve larinks lümeni yerine piriform sinüse ilerlemesiyle disfaji görülebilir [3,12]. Bazı olgularda eş zamanlı granülasyon dokularına rastlanabilir [4]. Ekstrüzyon durumunda yapılması gereken tedavi implantın çıkarılmasıdır. Bu işlem endoskopik yada eksternal yolla yapılabilir [4]. Öncelikle endoskopik yöntem tercih edilmeli, eğer ödem veya granülasyon gibi bir nedenden dolayı yapılmıyorsa eksternal yol uygulanmalıdır [5].

Ekstrüzyonun önüne geçmek için cerrahi sırasında iç perikondriumun travmatize edilmemesine özen gösterilmeli, travmatik olgularda ve revizyon olgularda ekstrüzyon riskinin olabileceği akılda tutulmalıdır. Bu tür olgularda titanium implant iyi bir alternatif olabilir.

## Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

## Kaynaklar

- McCulloch TM, Hoffman HT. Medialization laryngoplasty with expanded polytetrafluoroethylene. Surgical technique and preliminary results. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1998;107(5 Pt 1):427-32.
- Friedrich G. Titanium vocal fold medializing implant: introducing a novel implant system for external vocal fold medialization. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1999;108(1):79-86.
- Laccourreye O, Hans S. Endolaryngeal extrusion of expanded polytetrafluoroethylene implant after medialization thyroplasty. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2003;112(11):962-4.
- Halum S, Postma G, Koufman J. Endoscopic management of extruding medialization laryngoplasty implants. *Laryngoscope* 2005;115:1051-4.
- Erkul E, Cincik H, Ural A. Extrusion of Gore-tex implant after medialization thyroplasty. *J Laryngol Voice* 2011;1:72-4.

6. Mohanty S, Gapinath M, Mukundan S. Gore-Tex medialization thyroplasty in patients with unilateral vocal cord paralysis. *Int J Phonosurg Laryngol* 2011;1:11-3.
7. Nerurkar NK, Shukla SC. Stridor due to Bilateral Implant Migration 5 Years after Bilateral Medialization Laryngoplasty. *Int J Phonosurg and Laryngol* 2012;2(2):82-4.
8. Young VN, Zullo TG, Rosen CA. Analysis of laryngeal framework surgery: 10-year follow-up to a national survey. *Laryngoscope* 2010;120(8):1602-8.
9. Cashman S, Simpson CB, McGuff HS. Soft tissue response on rabbit larynx to Gore-tex implants. *Ann Otol Laryngol* 2002;111:977-82.
10. Ustundag E, Boyaci Z, Keskin G. Soft tissue response of the larynx to silicone, Gore-tex, and irradiated cartilage implants. *Laryngoscope* 2005;115:1009-14.
11. Schneider-Stickler B, Gaechter J, Bigenzahn W. Long-term results after external vocal fold medialization thyroplasty with titanium vocal fold medialization implant (TVFMI). *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2013; 270:1689-94.
12. Feinberg S, Lopez-Guerra G, Zeitels SM. Hypopharyngeal extrusion of 2.5 feet (76 cm) of polytetrafluoroethylene (Gore-Tex): initial laser-assisted office-based removal and micropharyngeal completion. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2010;119(9):573-7.

**How to cite this article:**

Bakır S, Akdağ M, Gül A, Yılmaz B, Şengül E. Titanium Implant Medialization Laryngoplasty Application in the Case of a Silicone and Gore-Tex Extrusion. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 544-7.



## Acquired Urethral Diverticulum Following Hypospadias Repair: A Case Report

### Hipospadias Cerrahisinden Sonra Görülen Üretral Divertikül; Olgu Sunumu

Üretral Divertikül / Urethral Diverticulum

Onur Dede<sup>1</sup>, Mansur Dağgüllü<sup>1</sup>, Mazhar Utangaç<sup>1</sup>, Necmettin Penbegül<sup>1</sup>, Gülay Dede<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Department of Urology, Faculty of Medicine, Dicle University,

<sup>2</sup>Department of Clinical Microbiology and Infectious Diseases, Gazi Yasargil Training and Research Hospital, Diyarbakır, Turkey

#### Özet

Üretral divertikül erkeklerde nadir görülen bir durumdur. Hastalar idrar yapma ile ilgili semptomlar ve üretra ile ilişkili kitle ile başvuruda bulunurlar. Bu çalışmada fizik muayene, ultrason ve MR'da divertikül saptanamadı, üretrografi yapıldı üretral divertikül ve içerisinde 2,5 cm taş tesbit edildi. Hastaya divertikül eksizyonu ve üretroplasti yapıldı.

#### Anahtar Kelimeler

Üretral Divertikül; Erkek Hasta; Hipospadias Cerrahisi

#### Abstract

Urethral diverticulum is a rare condition in men. Patients often presented with voiding symptoms and mass with related urethra. In this study, diverticula did not detected after result of ultrasound, MRI and physical examination, Retrograde urethrography was performed and diverticulum and 2.5 cm stone was detected in diverticula. The exsion of urethral diverticula and urethroplasty were performed.

#### Keywords

Urethral Diverticulum; Male Patient; Hypospadias Repair

DOI: 10.4328/JCAM.3487

Received: 04.04.2015 Accepted: 14.04.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 548-9

Corresponding Author: Onur Dede, Department of Urology, Faculty of Medicine, Dicle University, Diyarbakır, Turkey.

GSM: +905057019530 F.: +90 4122488001 E-Mail:dronurdede@hotmail.com



## Introduction

Male urethral diverticulum is rare, and always located in the penile urethra. It is classified as either congenital or acquired [1], and may be defined as pouch-like enlargements that are continuous with the urethral lumen. In males, acquired diverticula may be found anywhere along the urethra, and the peno-scrotal junction is the most common site for anterior urethral diverticulum. Urethral diverticulum can occur in patients who have undergone hypospadias surgery, particularly those who had an onlay island flap repair, and bladder catheterization [2,3]. The consequences of hypospadias repair continue throughout life, and surgical techniques are always evolving, making it easy to ignore past failures.

## Case Report

A 28 year old male presented with a 3 cm mass in the scrotum on the border of the left testis. He complained of urinary symptoms. He had had hypospadias repair 20 years ago with onlay island flap from scrotum skin. The patient had initially noticed the mass 7 years previously, and it had continued to grow since then. On physical examination, there was a scrotal mass as a primary intrascrotal lesion. Scrotal ultrasonography showed a wall-calcified mass at the border of the scrotum and left testis, but did not make a distinction between a benign and a malignant mass. Magnetic resonance (MR) imaging was used for evaluation of scrotal abnormalities and showed a mass with calcified wall. There was no information regarding the relationship between mass and urethra.

Retrograde urethrography was performed and diverticulum was detected. The patient underwent a diverticulectomy and a primary urethroplasty (Figure 1a, 1b, 1c). The diverticulum was

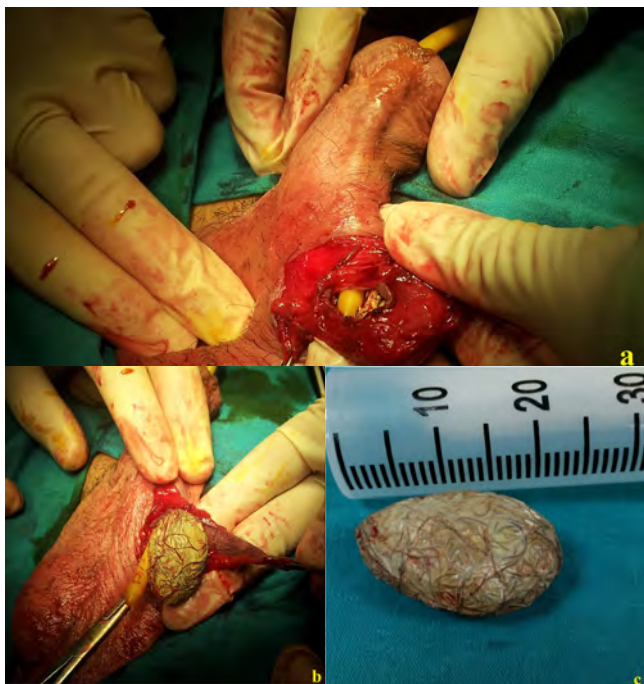


Figure 1. The urethral diverticula and stone (A,B,C)

dissected, involving its entire neck, until the urethra was completely exposed. A urethral defect was closed using 4-0 loose polydioxanone, and the penile dartos was interposed to avoid fistulas.

## Discussion

Urethral diverticula are either congenital or acquired, and are rarely observed in men. The suspected mechanisms that exist for acquired diverticula in males are related to obstruction and increased urethral pressure [4]. Diverticula are divided into two types; saccular and tubular. The connection between the urethral diverticula and the true urethral lumen may form a narrow or a wide neck. Urethral diverticula are associated with urinary obstruction, urinary stasis, and calculosis [5]. The most common etiologies of male acquired diverticula include urethral trauma, stricture, abscess, or post-hypospadias repair [1,6]. Indeed, the urethral diverticulum rate is 0.5% after hypospadias surgery [7]. In the present study, the patient had undergone hypospadias repair 20 years previously, and although he had a urethral diverticulum, he did not complain of any voiding symptoms, and there was no link between mass and urethra during palpation. The patient's MR showed a mass in the scrotum with calcified wall.

The recommended treatment is surgical excision of the diverticulum and urethroplasty over a transurethral catheter. If the urethral defect is very large, then extragenital free grafts can be used. In some cases, an endoscopic approach has been applied to small diverticula. There is no perioperative morbidity after surgical treatment, and short-term follow-up can be marked by the recurrence of diverticulum, fistula formation, and urethral stenosis [8]. With regard to the present case, a diverticulectomy and a primary urethroplasty were performed.

Conclusion: While it is rare to find acquired urethral diverticula in males, a high index of suspicion is required for correct diagnosis and treatment. A urethral diverticulum may clinically mimic primary intrascrotal mass lesions, and retrograde urethrography is required as a gold standard method in diagnosis. Open diverticulectomy and urethroplasty is the recommended approach for large diverticula.

## Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

## References

1. Parker WR, Wheat J, Montgomery JS, Latini JM. Urethral diverticulum after endoscopic urethrotomy: case report. *Urology* 2007;70(5):1005-7.
2. Baskin LS, Duckett JW, Ueoka K, Seibold J, Snyder HM. Changing concepts of hypospadias curvature lead to more onlay island flap procedures. *J Urol* 1994;151(1):191-6.
3. Laudone VP, Green KF, Wyker AW. Giant posterior urethral diverticulum after radical retropubic prostatectomy. *J Urol* 1988;139(2):364-6.
4. Allen D, Mishra V, Pepper W, Shah S, Motiwala H. A single-center experience of symptomatic male urethral diverticula. *Urology* 2007;70(4):650-3.
5. Kajiwaru M, Inoue K, Kato M, Usui A, Matsubara A, Usui T. Anterior urethral valves in children: a possible association between anterior urethral valves and Cowper's duct cyst. *Int J Urol* 2007;14(2):156-60.
6. Venkatanarasimha N, Freeman SJ, Dubbins PA. Posterior urethral diverticulum on transrectal sonography. *J Ultrasound Med* 2009;28(6):827-9.
7. Mouriquand PD, Persad R, Sharma S. Hypospadias repair: current principles and procedures. *Br J Urol* 1995;76(3):9-22.
8. Radojicic ZI, Perovic SV, Djordjevic ML, Vukadinovic VM, Djakovic N. 'Pseudo-spongionoplasty' in the repair of a urethral diverticulum. *BJU Int* 2004;94(1):126-30.

## How to cite this article:

Dede O, Dağgüllü M, Utangaç M, Penbegül N, Dede G. Acquired Urethral Diverticulum Following Hypospadias Repair: A Case Report. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 548-9.



# Hemoperitoneum From Spontaneous Bleeding of a Uterine Subserous Leiomyoma: A Case Report

## Uterin Subseröz myomun Spontan Kanamasına Bağlı Hemoperitoneum: Olgu Sunumu

Akut Myom Kanaması / Acute Bleeding of Myoma

Hacer Uyanıkoglu, Adnan Incebiyik, Engin Ozturk  
Department of Obstetrics and Gynecology, Harran University, Medical Faculty, Şanlıurfa, Türkiye

### Özet

32 yaşında virgo hasta yaygın karın ağrısı ve baygınlık hissi ile acil kliniğimize başvurdu. Yapılan muayenesinde tüm batında yaygın defansı ve rebound bulgusu ve suprapubik yaklaşık 10 cm'lik ele gelen kitlesi mevcuttu. Ultrasonografik tetkikinde orta hatta yerleşimli heterojen görünümlü kitle imajı ve barsak ansları arasında yaygın mayi ve koagulum izlendi. Sağ over izlenmiş olup sol over net izlenemedi. Akut batın içi kanama nedeniyle laparotomi yapılan hastada fundal subseröz myom üzerinde kanayan bir damar görüldü. Eksplozasyonda başka bir patolojik bulguya rastlanmadı. Bu olgu, virgo bir hastada uterin subseröz myomun travma öyküsü olmadan akut batın oluşturacak şekilde kanaması nedeniyle önemli bulundu.

### Anahtar Kelimeler

Myom; Spontan Kanama; Ruptür

### Abstract

#### Summary

A 32 year-old woman was admitted to our emergency department with severe abdominal pain and feeling faint . Involuntary guarding and 10 cm suprapubic mass was detected at the examination. Ultrasonography revealed a mass image which heterogenous and midline positional, and massive fluid, clots between loops of bowel. The right ovary was observed but left ovary was not. A bleeding vessel on fundal leiomyoma's anterior surface was seen during operation. There was no pathological finding additionally. This case was important because reported that a 10 cm subserous leiomyoma causes bleeding intraabdominally in a virgo woman without trauma history.

### Keywords

Leiomyoma; Spontaneous Bleeding; Rupture

DOI: 10.4328/JCAM.3402

Received: 30.03.2015 Accepted: 16.04.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 550-1

Corresponding Author: Hacer Uyanıkoglu, Department of Obstetrics and Gynecology, Harran University, Medical Faculty, Şanlıurfa, Türkiye.

GSM: +905355740425 E-Mail: huoglu@hotmail.com

## Introduction

Uterine leiomyomas are very common tumors found in women. Leiomyomas are usually asymptomatic. Spontaneous bleeding of a uterine leiomyoma is an unusual source of hemoperitoneum [1]. The cause seems to be spontaneous rupture of a leiomyoma vessel or is secondary to abdominal trauma [2].

In this case, patient is a virgo and had a unknown subserosal leiomyoma. We explored a superficial vein that actively bleeding without trauma history.

Spontaneous rupture of a superficial vein is extremely rare. This is a case report of such.

## Case Report

A 32 year-old woman was admitted to our emergency department with severe abdominal pain and feeling faint. She did not know a previously leiomyoma. She did not describe any trauma history and she has never had any surgeries and medical abnormality.

Her physical exam was significant only for diffuse lower abdominal pain, involuntary guarding and 10 cm suprapubic mass. Ultrasonography revealed a mass image which heterogenous and midline positional, and massive free pelvic fluid, clots between loops of bowel. The right ovary was observed but left ovary was not identified.

The patient became hemodynamically unstable. The initial Hb was 8.2 g/dL; Hct % 24.5; Wbc 16.000; PLT 213.000; BHCG 0.01; blood pressure 90/75 mmHg; pulse 105/min.

Acute hemoperitoneum due to ovarian torsion or ovarian cyst rupture was considered and emergency laparotomy was performed. There was 10 cm pedunculated subserous fundal leiomyoma. A bleeding vessel on anterior surface of fundal leiomyoma was seen during operation (figure 1). There was no



Figure 1. Actively bleeding superficial vessel of myoma

pathological finding additionally. Myomectomy was performed and hemostasis obtained via ligation of vessels. Approximately 2 liter of hemoperitoneum was encountered. The drain placed intraabdominally.

Postop Hb was 7.5; Hct % 22.6; Wbc 11.800; Plt 182.000. So, the patient received 2U of packed red blood cells. There were no complications postoperatively. She was discharged on postoperative day 3.

## Discussion

Uterine leiomyomas are common tumors in women, and most of their complications are well known. Some of these complications include menorrhagia, metrorrhagia, and pain secondary to degeneration [3]. Rupture of a uterine leiomyoma is an unusual source of severe hemoperitoneum. The cause seems to be spontaneous rupture of a leiomyoma vessel or is secondary to abdominal trauma or pregnancy [2,4].

Diagnosis is aided and confirmed by abdominal imaging modalities: ultrasound, computed axial tomography scan, and magnetic resonance imaging. Magnetic resonance imaging is highly accurate in evaluating leiomyoma size, number, location, and presence or extent of degeneration and hemoperitoneum, but it requires a stable patient [3].

Our patient was unstable, so we didn't consider MR imaging. Spontaneous bleeding of myomas are unusual, so; they can mimic other causes of hemoperitoneum. In the literature, internal bleeding from a ruptured serosal vein covering the myoma surface was mimicking upper gastrointestinal bleeding [5]. In our case, patient is a virgo and had a unknown subserosal leiomyoma. The myoma was mimicking left ovarian cyst rupture. We explored a superficial vein on anterior surface of myoma that actively bleeding during operation.

Spontaneous hemoperitoneum is a rare but serious complication of myomas. Rupture of a subserosal vein overlying a uterine leiomyoma may cause sudden and unexpected death [6]. Because surgical management is needed in an emergency, physicians should be aware of this rare but severe complication in patients with known or unknown uterine leiomyomas.

## Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

## References

1. Lackland AFB, San A. Massive hemoperitoneum resulting from spontaneous rupture of uterine leiomyoma. *Am J Emerg Med* 2008;26(8):974-2.
2. Estrade-Huchon S, Bouhanna P, Limot O, Fauconnier A, Bader G. Severe life-threatening hemoperitoneum from posttraumatic avulsion of a pedunculated uterine leiomyoma. *J Minim Invasive Gynecol* 2010;17(5):651-2.
3. Seth Lotterman MD. Massive hemoperitoneum resulting from spontaneous rupture of uterine leiomyoma. *Am J of Emerg Med* 2008;26(8):974-2.
4. Kasum M. Hemoperitoneum caused by a bleeding myoma in pregnancy. *Acta Clin Croat* 2010;49(2):197-200.
5. Su WH, Cheung SM, Chang SP, Lee WL. Internal bleeding from a ruptured serosal vein covering the myoma surface mimicking upper gastrointestinal bleeding. *Taiwan J Obstet Gynecol* 2008;47(3):352-4.
6. Ihama Y, Miyazaki T, Fuke C. Hemoperitoneum due to rupture of a subserosal vein overlying a uterine leiomyoma. *Am J Forensic Med Pathol* 2008;29(2):177-80.

## How to cite this article:

Uyanikoglu H, Incebiyik A, Ozturk E, Yalinkilinc Y. Hemoperitoneum From Spontaneous Bleeding of a Uterine Subserous Leiomyoma: A Case Report. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 550-1.



## In a Cerebral Palsy Patient During Finger Amputation Given the Nitrous Oxide After Occuring Pneumocephalus

### Serebral Palsılı Hastada Parmak Amputasyonu Sırasında Verilen Nitröz Oksid Sonrası Gelişen Pnömocefali

SP ve Pnömocefali / CP and Pneumocephalus

Tarık Akman<sup>1</sup>, Mustafa Güven<sup>1</sup>, Adem Bozkurt Aras<sup>1</sup>, Canan Akman<sup>2</sup>, Murat Coşar<sup>1</sup>  
<sup>1</sup> Beyin ve Sinir Cerrahisi AD, Çanakkale 18 Mart Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Çanakkale,  
<sup>2</sup> İlk Acil Yardım Servisi, İstanbul Kanuni Sultan Süleyman Eğitim ve Araştırma Hastanesi, İstanbul, Türkiye

#### Özet

Kranial kavite içerisinde hava bulunması olarak tanımlanan pnömocefalinin nedenleri arasında travma, tümörler, enfeksiyonlar, konjenital kraniyum anomalileri, iyatrojenik faktörler, lomber ponksiyon, spinal veya kranial cerrahi sonrası, epidural veya spinal anestezi sonrası çok nadiren de Nitröz oksid anestezine bağlı gelişebilir. Bu olgu sunumunda Serebral Palsi' li hastada baş ağrısı nedeniyle kontrol beyin BT' si çekildikten sonra insidental yakalanan nadir görülen pnömocefalinin etiolojisini sunmayı amaçladık.

#### Anahtar Kelimeler

Nitröz Oksid; Pnömocefali; Serebral Palsi

#### Abstract

Ranked among the causes of the cranial cavity Pneumocephalus defined as the presence of air trauma, tumors, infections, congenital anomalies cranium, iatrogenic factors, lumbar puncture, post operative cranial or spinal surgery, also can develop after epidural or spinal anesthesia such as Nitrous oxide anesthesia. In this present case because of the headaches in patients with Cerebral Palsy control cranial CT shot after we aim to provide incidentally captured rarely etiology in pneumocephalus.

#### Keywords

Cerebral Palsy; Nitrous Oxide; Pneumocephalus

DOI: 10.4328/JCAM.3441

Received: 30.03.2015 Accepted: 16.04.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 552-4

Corresponding Author: Tarık Akman, Beyin ve Sinir Cerrahisi AD, Çanakkale 18 Mart Üniversitesi, Araştırma ve Uygulama Hastanesi, Kepez, Çanakkale, Türkiye.  
GSM: +905322150627 T.: +90 2862635950-1090 F.: +90 2862635956 E-Mail: tarkakman@yahoo.com.tr

## Giriş

Pnömocefali serebral boşluklarda hava bulunması durumu olarak tanımlanır. Genelde en sık sebebi kafa travmasıdır. Tümörler, enfeksiyonlar, mikronöroşirürjikal girişimler, paranasal sinüs cerrahisi, lomber ponksiyon, ventrikülografi, pnömoensefalografi gibi iyatrojenik sebeplerde tanımlanmıştır. Epidural anestezi ve analjeziye bağlı çok nadir olarak görülür [1].

Bu olgumuzda Serebral Palsi' li baş ağrısı, bulantı, kusma nedeniyle çekilen kontrol BBT' de insidental olarak saptanan bir pnömocefalinin etiyojisi sunulmaktadır.

## Olgu Sunumu

45 yaşında erkek hasta daha önceden Serebral Palsi tanısı almış olup, son günlerde yakınları tarafından şiddetli baş ağrısı, bulantı, kusma tarif edilerek olgumuz Acil servisimize getirildi, çekilen kontrol BBT' de her iki lateral ventrikülün anterior horne' larında pnömocefali saptanması üzerine hem altta yatan etiyojinin araştırılması hem de öncelikle primer medikal anti ödem tedavisinin başlanması; bol sıvı alımı, hidrasyonun sağlanması ve yatak istirahatine alınması gerektiğinden olgumuz Nöroşirürji servisine yatış verildi. Spinal tümör ve enfeksiyon açısından tüm spinal kolon BT' leri çekildi, servikal spinal BT' sinde intradural ve ekstradural mesafelerde ve boyun bölgesinde multipl hava imajları tespit edilmesi üzerine C7-Th1 seviyesinden özellikle servikal MRG alınmak istendi, fakat belirgin spastisite nedeniyle MRG' de tam bir uyum sağlayamadığı için olgumuza çekilemedi.

Servikal spinal BT' sinde intradural, ekstradural mesafelerde ve boyun bölgesinde multipl hava imajları tespit edilmesi ayrıca Sedimentasyon (88), CRP (33), Kreatin Kinaz (543 U/L), Laktat Dehidrogenaz (858 U/L) saptanması ve etiyojije yönelik istenen KBB, Nöroloji, Enfeksiyon Hastalıkları konsültasyonları sonrası istenen toraks BT' de ve boyun USG' unda olabilecek bütün etiyojistik etkenler ve odaklar ekarte edildi.

Anamnezde yaklaşık üç ay önce sağ el 5.parmak amputasyonu nedeniyle genel anestezi sırasında nitroz oksid (N2O) inhalasyonu uygulanan olgumuza pnömocefaliyi açıklayacak başka bir etken veya odak bulunamadı.

Çekilen kontrol BBT' lerinde her iki lateral ventrikülün anterior horne' daki pnömocefalinin rezorbe olmaya başladığı görüldü. Kademeli olarak primer anti ödem tedavisi azaltıldı. Olgumuz yatışının 14. gününde çekilen en son kontrol BBT' sinde her iki lateral ventrikül anterior horne' daki pnömocefalinin tamamen rezorbe olduğu görüldükten sonra primer medikal anti ödem tedavisi tamamen kesildi.

Olgumuz Serebral Palsi tanısıyla alt ekstremitelerinde belirgin paraparezisi (4-/5), Ashworth derece 3 spastisitesi ve disfazisi devam ederek ayrıca enfeksiyon belirteçleri ve biyokimyasal parametreleri normal değerlere düştükten sonra yatışının on beşinci gününde gerekli önerilerde bulunarak taburcu edildi (Resim 1-2-3-4).

## Tartışma

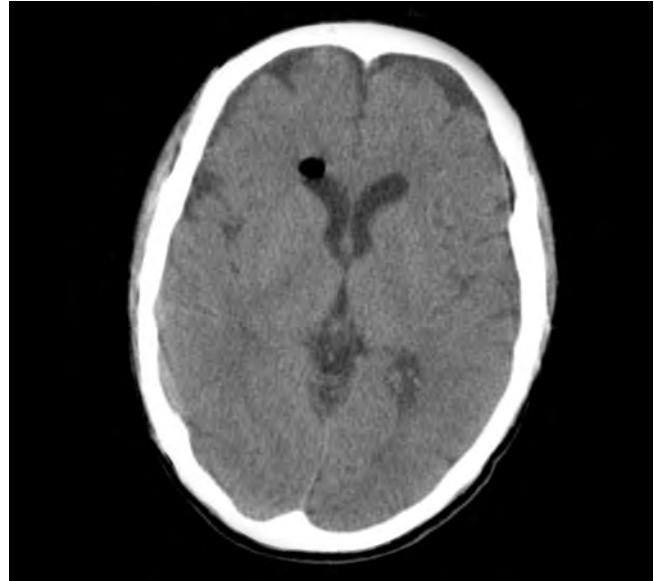
Epidural anestezi ve analjeziye bağlı çeşitli komplikasyonlar görülebilir. İlaça bağlı olarak; alerji, toksisite, işleme bağlı olarak; bel ağrısı, baş ağrısı, spinal kord veya sinir kökü yaralanması ve diğer nörolojik komplikasyonlar görülebilir. Spinal cerrahi sonrasında pnömocefali ortaya çıkması nadirdir. Pnömocefali intrak-



Resim 1. Yatışının 1. günü çekilen BBT



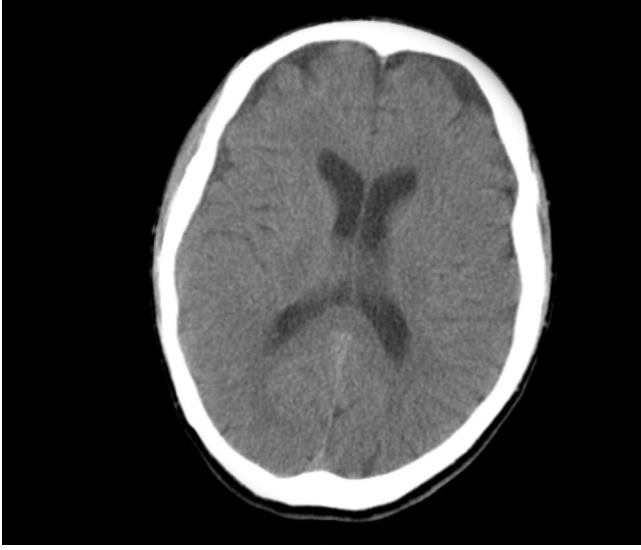
Resim 2. Yatışının 1. günü çekilen Servikal BT



Resim 3. Yatışının 10.gününde çekilen kontrol BBT

ranial, epidural, subdural, subaraknoid, intraventriküler, intraparaknoidal olarakta görülebilir [2].

Genellikle pnömocefalinin en sık nedeni, özellikle kafa tabanı kırıklarının eşlik ettiği kafa travmalarıdır. Pnömocefalinin diğer intrakraniyal nedenleri arasında tümörler, enfeksiyonlar, BOS fistülleri, nitroz oksid (N2O) anestezi ve kraniyal ya da spinal cerrahiler yer almaktadır. Posterior spinal cerrahi sonrası pnö-



Resim 4. Yatışının 14.gününde çekilen kontrol BBT

mosefali meydana gelmesi ile ilgili olarak az sayıda olgu sunumu bulunmaktadır [3].

Pnömoşefali genellikle baş ağrısı, bulantı, kusma, baş dönmesi, bilinç değişikliği gibi semptomlarla kendini gösterir. Pnömoşefali tanısında X-ray, BBT, MRG kullanılır. Bilgisayarlı Beyin Tomografisi yüksek duyarlılığı ve özgünlüğü olan havayı tespit edebilmesi nedeniyle ilk seçenek tanı ve görüntüleme yöntemi olarak uzun zamandan beri kullanılır [4].

Pnömoşefali patogeneğinde genellikle iki mekanizma vardır; intrakranial basınçta azalma ve dura defekti rol oynar. N2O anestezisi de patogeneşte rol oynayabilir. Hava ile dolu boşluklara N2O azota göre 35 kat daha hızlı yayılır; bu mekanizmayla daha önceden meydana gelen pnömoşefalinin hacmi ve basıncı N2O anestezisi altında artar. Bazen gaz açığa çıkaran bakterilerinde pnömoşefali mekanizmasında rol oynadığı gösterilmiştir [5]. Pnömoşefali tedavisinde %100 O2 inhalasyonu kullanılarak azotun difüzyon hızı artırılmaya çalışılır. Bol hidrasyon, analjezikler, sedatifler, antiemetikler ve yatak istirahati semptomatik pnömoşefali si olan hastaların konservatif tedavisinde kullanılır. Genellikle tüm olgularda bu tedaviler yeterli olmakta ve semptomlar yaklaşık olarak 2-3 hafta içinde ortadan kalkmaktadır [6].

N2O inhalasyonunun uygun konsantrasyonlarda sedasyon amacıyla klinikte kullanılmasının hiçbir toksik etkisi yoktur. Çok geniş güvenlik sınırlarına sahip olduğu halde bazen yan etkiler meydana gelebilmektedir[7]. En önemli komplikasyonu hipoksinin oluşmasıdır. Hipoksinin ileri evrelerinde siyanoz, respiratuar ve kardiyovasküler depresyon tablolarıyla karşılaşılabilir. Nitroz oksid inhalasyon yoluyla uygulandığında burun ve sinüslerdeki basınca bağlı orta kulakta uğuldama ve zaman zaman baş ağrısına neden olur [8].

Bizim olgumuzdaki pnömoşefalinin olası meydana geliş patogeneğinde diğer sebepler ekarte edildikten sonra somut olarak el ile tutulan sadece N2O anestezisinin rol oynadığı sonucuna varıldı.

#### Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

#### Kaynaklar

1. Ayberk G, Yaman ME, Özveren MF. Symptomatic spontaneous pneumocephalus after spinal fusion for spondylolisthesis. J Clin Neurosci 2010;17(7):934-6.
2. Nowak R, Maliszewski M, Krawczyk L. Intracranial subdural hematoma and pneumocephalus after spinal instrumentation of myelodysplastic scoliosis. J Pediatr Orthop B 2011;20(1):41-5.
3. Sasaki K, Matsumoto T, Mizuno T, Ikuta S, Akisue T, Fujioka H, et al. Pneumocephalus associated with cerebrospinal fluid fistula as a complication of spinal surgery. Case Report Med 2010;201(2):328-33.
4. Yun JH, Kim YJ, Yoo DS, Ko JH. Diffuse pneumocephalus: A rare complication of spinal surgery. J Korean Neurosurg Soc 2010;48(3):288-90.
5. Sertöz N, Demir F, Ayanoğlu HÖ. Epidural katater çekilmesi sonrası spinal hematoma. Türk Anest Rean Der Dergisi 2010;38(1):142-6.
6. Emmez H, Durdağ E, Uslu S, Paşaoğlu A, Çeviker N. Intracerebral tension pneumocephalus complicating endoscopic sinus surgery. Acta Neurochir 2009;151(8):1001-2.
7. Habibi Z, Nejat F, El Khashab M. Possible causes of seizure after spine surgery. J Pediatr Neurosci 2010;5(1):36-8.
8. Turgut M, Akyüz O. Symptomatic tension pneumocephalus: An unusual postoperative complication of posterior spinal surgery. J Clin Neurosci 2007;14(7):666-8.

#### How to cite this article:

Akman T, Güven M, Aras AB, Akman C, Coşar M. In A Cerebral Palsy Patient During Finger Amputation Given The Nitrous Oxide After Occuring Pneumocephalus J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 552-4.



## Incomplete McCune-Albright Syndrome: A Case Report

### İncomplet McCune-Albright Sendromu: Olgu Sunumu

İncomplet McCune-Albright Sendromu / Incomplete McCune-Albright Syndrome

Nagehan Aslan<sup>1</sup>, Tuğba Koca<sup>1</sup>, Özgür Pirgon<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Pediyatri AD, <sup>2</sup>Çocuk Endokrinolojisi BD, Süleyman Demirel Üniversitesi, Isparta, Türkiye

50. Türk Pediyatri Kongresi, Antalya, Türkiye

#### Özet

Kemiğin fibröz displazisi, kemikte ağrı, deformite ve kırığa neden olabilen, genetik, kalıtsal olmayan bir hastalık olup benign monostotik fibröz displaziden, McCune-Albright Sendromuna kadar değişen geniş bir spektruma sahiptir. Nadir görülen McCune-Albright sendromu erken puberte, cafe au lait diye adlandırılan kahverengi lekeler ve fibröz displazi triadı ile karakterizedir. Burada patolojik kırıklar nedeni ile başvuran, endokrin hiperfonksiyonların olmayışı nedeni ile incomplet McCune-Albright sendromu tanısı olarak seyrinde erken puberte gelişen olguyu sunduk.

#### Anahtar Kelimeler

McCune-Albright Sendromu; Fibröz Displazi; Cafe Au Lait Lekeleri

#### Abstract

Fibrous dysplasia of bone is a genetic, non-inheritable disease that can cause bone pain, bone deformities and fracture. It has a large clinic spectrum from benign monostotic fibrous dysplasia to McCune-Albright syndrome. Rare McCune-Albright syndrome is characterized by precocious puberty, cafe au lait spots and fibrous dysplasia. Herein we presented a case who was preferred to hospital with pathological fractures and diagnosed with Incomplet McCune Albright syndrome because of the lack of endocrine hyperfunction and developed early puberty at clinical course.

#### Keywords

McCune-Albright Syndrome; Fibrous Dysplasia; Cafe Au Lait Spots

DOI: 10.4328/JCAM.3489

Received: 04.04.2015 Accepted: 16.04.2015 Printed: 01.08.2014 J Clin Anal Med 2014;5(suppl 4): 555-7

Corresponding Author: Nagehan Aslan, Pediyatri Anabilim Dalı, Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi Hastanesi, Çünür, 32000, Isparta, Türkiye.

GSM: +905055499986 E-Mail: nagehan\_aslan@hotmail.com

## Giriş

Fibröz displazi kromozom 20q13'deki GNAS kompleks lokusunun Gs proteinin  $\alpha$  subunitindeki gen kodunda meydana gelen mutasyonlara bağlı oluşur [1]. İlk kez 1937 yılında polyostotik fibröz displazi olarak tanımlanmış olan McCune-Albright Sendromu ise deride kahverengi renklenme ( Cafe au lait) ve otoendokrin hiperfonksiyon ile karakterizedir. Hastalar genellikle erken puberte ile başvurarak tanı alırlar. Bu olgu sunumunda patolojik kırıklar ile tanı alan ve tanıdan 1 yıl sonra vajinal kanama gelişen McCune-Albright sendromu nadir görülmesi nedeniyle sunulacaktır.

## Olgu Sunumu

Üç buçuk yaşında kız hasta, tekrarlayan sol femur kırığı, yürüme bozukluğu, ciltte renk değişikliği şikayetleri ile başvurdu. Hastanın öyküsü derinleştirildiğinde son iki yılda, sonuncusu bir ay önce olmak üzere toplam 3 kere sol femurda kırık meydana geldiği ve doğduğundan beri vücudunun çeşitli yerlerinde doğum lekesi olduğu söylenen kahverengi lekelerinin bulunduğu öğrenildi. Fizik muayenesinde sol göğüs alt kısmında 20x8 cm ve sağ yanda gluteus üst kısmında 20x10 cm boyutlarında cafe au lait lekeleri (Resim-1) ve sol bacakta uzun bacak ateli mev-



Resim 1. Olgunun gövdesinde 20x10 cm boyutunda cafe au lait lekesi

cuttu. Tetkiklerinde WBC:5600 mm<sup>3</sup>, Hb:13 gr/dL, Plt:242.000 mm<sup>3</sup>, BUN:9 mg/dL, kreatin:0.3 mg/dL, kalsiyum:9.9 mg/dL, fosfor: 4,7 mg/dL, alkalin fosfataz:473 U/L(N), 25-OH Vitamin D3: 28,3 nmol/lit (düşük), ACTH, Kortizol, ST4, TSH, FSH, LH değerleri normal idi. Kemik biyopsisinde polyostotik fibröz displazi saptandı. Olguda endokrin hiperfonksiyonların olmayışı nedeniyle inkomplet McCune Albright Sendromu düşünülerek pamidronat ve D vitamini tedavisi başlandı. Tanı sonrası birinci yılında vajinal kanama görülen olgu tamoksifen ile tedavi edildi.

## Tartışma

Fibröz displazi, fibröz dokunun, normal veya tam gelişmemiş kemik doku ile yer değiştirmesi veya düzensiz osteoid formasyonu ile karakterizedir. Bu hastalığın 3 klinik formu tanımlanmıştır. Monostotik form (%70-80), sadece tek bir kemiği etkiler, polyostotik form (%20-30), birden fazla kemiği etkiler [2]. Üçüncü ve en nadir (%5) form ise polyostotik forma kutanöz ve endokrin bulgularında eşlik ettiği McCune-Albright sendromudur. İlk kez 1937 yılında McCune ve Albright tarafından tanımlanan sendrom klasik olarak polyostotik tip fibröz displazi, birden fazla "cafe au lait" lekeleri ve endokrin bozuklukları içerir [2].

Membranöz gonadotropin reseptörlerine bağlı bir postreseptör sinyal proteini olan G-proteinini aktive edici mutasyonun sözcüğü olduğu sendrom kemik yapılar, endokrin sisteme ve cilde ait olan ve hafif düzeyden çok ağır tablolara kadar ulaşabilen semptomlar ile seyreden bir hastalıklar grubudur [1].

Endokrin hiperfonksiyonlar erken puberteye eşlik edebildikleri gibi erken puberte olmadan da görülebilir. Sendromda erken puberte dışında hipertiroidi, hiperkortizolemi, akromegali, hiperprolaktinemi içeren multipl endokrin anormallikler de görülebilmektedir [3]. Olgumuzda tanıda endokrin hiperfonksiyonlar saptanmışken izleminde erken puberte görülmüştür.

Sendromda erken puberte genellikle periferik tipte başlamaktadır. Önlem alınmadığı takdirde epifiz plakları erken kapanmakta ve bu durum boy kısalığı ile sonuçlanmaktadır. Erken puberte tedavisinde medroksiprogesteron asetat, siproteron asetat, östrojen reseptör blokerleri, antiöstrojen etkili tamoksifen ve mikroaromatizasyon inhibitörü olan testolaktan kullanılabilir [4,5]. Bizim olgumuzda erken puberte tamoksifen ile tedavi edilmiştir.

Kemik tutulumları özellikle uzun kemiklerde ve kraniyofasiyel kemiklerde gözlenen fibröz displazidir [6]. Kemik lezyonları deformite ve kırıklara neden olabilir. Bu hastalarda zamanla normal kemik dokunun yerini fibröz doku almaktadır. Bu durum alt ekstremitelerde vücut ağırlığını taşıyan kemiklerde olduğunda topallama, deformite ve kırıklara neden olabilmektedir. Olgumuzun öyküsünde femurda tekrarlayan kırıklar olduğu öğrenilmiştir.

Aktif melanosit proliferasyonunu yansıtan Cafe au lait lekeleri genellikle vücudun bir yarısında olmaktadır. Kraniyofasiyel tutulum varsa yüzde asimetri, sinirler üzerine bası ile nörolojik bulgular yakınma nedeni olabilir. Cilt lekeleri sıklıkla kemik lezyonlarının olduğu tarafta yerleşmekte ve orta hattı geçmemektedir [7].

Fibröz displazi tedavisinde kemik ağrılarının azaltılması ve litik lezyonların düzeltilmesi için bifosfonat grubu ilaçlar kullanılmaktadır. Kemik deformitelerinin bilinen hormonal veya medikal tedavisi yoktur. Cerrahi fraktürlerin ve deformitelerin tedavisinde yardımcı bir metodur [8]. Kalsiyum, fosfor ve vitamin D desteği bazı olgularda faydalı olmuştur. Tiroid dokusunda nodül ve kist oluşumları veya bezin hiperplazisi, bazı hastalarda büyüme hormonunun aşırı salınımı ve buna bağlı kaba yüz görünümü, ellerde ve ayaklarda büyüme, akromegali ve benzeri değişiklikler izlenebilmektedir. Cerrahi tedavi veya medikal tedavi ile tedavi mümkündür.

## Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.



**Kaynaklar**

1. Tabareau-Delalande F, Collin C, Gomez-Brouchet A, Decouvelaere AV, Bouvier C, Larousserie F, et al. Diagnostic value of investigating GNAS mutations in fibro-osseous lesions: a retrospective study of 91 cases of fibrous dysplasia and 40 other fibro-osseous lesions. *Mod Pathol* 2013;26(7):911-21.
2. Diaz A, Danon M, Crawford J. McCune Albright syndrome and disorders due to activating mutations of GNAS1 . *J Pediatr Endocrinol Metab* 2007;20:853-80.
3. Collins MT, Singer FR, Eugster E. McCune-Albright syndrome and the extraskeletal manifestations of fibrous dysplasia . *Orphanet J Rare Dis* 2012;7:4.
4. Lee TC, Miller WL, Auchus RJ. Medroxyprogesterone acetate and dexamethasone are competitive inhibitors of different human steroidogenic enzymes. *J Clin Endocrinol Metab* 1999;84:2104-110.
5. Eugster EA, Rubin SD, Reiter EO, Plourde P, Jou HC, Pescovitz OH et al. Tamoxifen treatment for precocious puberty in McCune Albright syndrome: a multicenter trial. *J Pediatr* 2003;143:60-6.
6. Leet AI, Chebli C, Kushner H, Chen CC, Kelly MH, Brillante BA et al: Fracture incidence in polyostotic fibrous dysplasia and the McCune-Albright syndrome. *J Bone Miner Res* 2004;19(4):571-77.
7. Landau M, Krafchik BR. The diagnostic value of café-au-lait macules. *J Am Acad Dermatol*. 1999; 40:877-90.
8. Stanton RP, Ippolito E, Springfield D, Lindaman L, Wientroub S, Leet A: The surgical management of fibrous dysplasia of bone. *Orphanet J Rare Dis* 2012;7 :1

**How to cite this article:**

Aslan N, Koca T, Pirgon Ö. Incomplete McCune-Albright Syndrome: A Case Report. *J Clin Anal Med* 2014;5(suppl 4): 555-7.

